

양측에 발생한 엽내형 폐격리증의 외과적 치료

-1례 보고-

손제문* · 안광수* · 홍순필* · 문광덕* · 양수호* · 김영학* · 지행옥*
서흥석** · 전석철** · 이재은***

=Abstract=

Surgical Treatment of Bilateral Pulmonary Sequestration -Report of A Case-

Jeh Moon Sohn, M.D.* , Kwang Soo Ahn, M.D.* , Soon Pil Hong, M.D.* , Kwang Duk Moon, M.D.* ,
Soo Ho Yang, M.D.* , Young Hak Kim, M.D.* , Heng Ok Jee, M.D.* ,
Heung Seok Seo, M.D.** , Seok Chol Jeon, M.D.** , Jae Eun Lee, M.D.***

The pulmonary sequestration is a rare congenital malformation of the lung, concerning about the abnormal feeding systemic artery, may happen a serious complication of bleeding during operation if not recognized before operation.

We experienced a case of bilateral intralobar pulmonary sequestration preoperatively confirmed by aortogram. An Aortogram demonstrated a anomalous systemic artery arising from thoracic aorta just above the diaphragm. The artery bifurcated and supplied areas of both right and left lower lobes. On the operative field, left lower lobectomy was done with deivision and ligation of left branch of anomalous artery and triple ligation of remained branch of anomalous artery was done.

Postoperative course was uneventful. She was discharged on postoperative seventeenth day.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1995;28:792-6)

Key words : 1. Lung sequestration, intralobar

증 례

21세 여자 환자로서 어려서부터 반복되는 상기도감염으로 빈번하게 개인의원을 찾아 치료하였었고 근래에 기침과 가래, 혈담 등의 증상이 악화되어 외부 병원에서 촬영

한 단순 흉부 X선 소견상 좌측 하엽에 커다란 낭포성 병변이 있고(Fig. 1) 흉부 컴퓨터 단층촬영 결과 역시 좌측에 액체가 차있는 낭종이 확인되었으며 우측 하엽의 후저부 분절에도 기관지가 확장되는 소견이 관찰되어(Fig. 2) 염증이 동반된 폐기관지낭종으로 진단받고 수술을 하기위해

* 한양대학교 의과대학 흉부외과학교실

* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, College of Medicine, Hanyang University

** 한양대학교 의과대학 진단방사선과학교실

** Department of Diagnostic Radiology, College of Medicine, Hanyang University

*** 성동 방사선과의원

*** Seongdong Radiologic Clinic

논문접수일: 94년 8월 3일 심사통과일: 94년 8월 19일

통신저자: 손제문, (133-792) 서울시 성동구 행당동 17, Tel. (02) 293-2111,

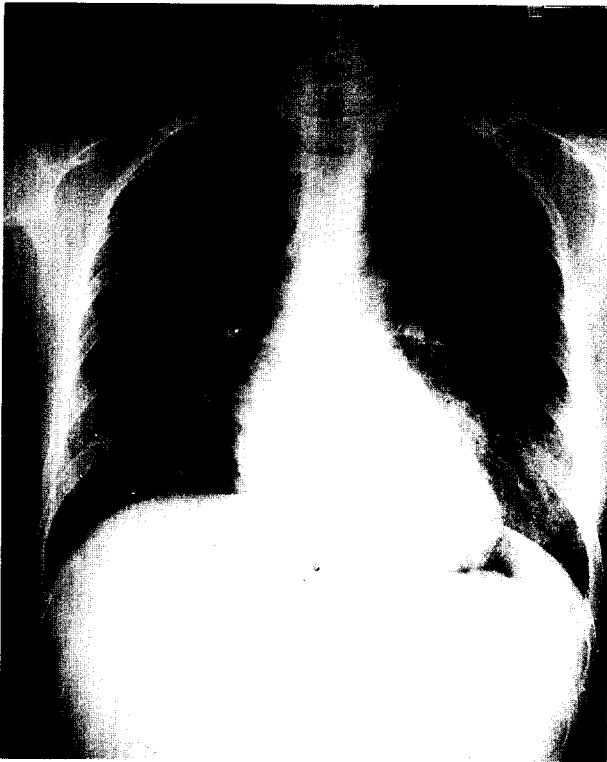


Fig. 1. Preoperative chest PA & left lateral view



본원으로 전원되었다. 입원 당시 하루에 100~200cc의 혈담과 심한 기침, 38℃ 이상의 고열, 심한 백혈구 증가 소견이 있어 체위를 이용하여 객담을 배출시키고 항생제를 투여한 바 입원 5일째 부터 증세는 현저히 호전되었다. 환자의 병력과 병소의 위치로 보아 폐격리증의 가능성을 생각하여 추가적인 진단방법으로 대동맥조영술을 시행한 바 대동맥이 횡격막을 통과하는 부위에서 앞쪽으로 기형적인 굵은 혈관이 분지되어 상부로 주행하다가 두 개의 혈관으로 다시 분지하여 좌우폐 하엽으로 들어와 폐실질을 조영시키는 소견이 확인되어 (Fig. 3) 양측 폐엽에 존재하는 엽내형 폐격리증으로 확진할 수 있었다. 드물게 발생할 수 있는 기관지-식도루는 식도위내시경과 식도조영술을 시행하여 존재하지 않음을 확인하였다.

이 환자에서는 주병변이 좌하엽이므로 우선 좌하엽절제술을 시행한 후 우하엽의 병변은 일차 수술에서 회복한 다음 추후 수술을 시행하기로 계획하였다. 수술은 좌측 여섯 번째 늑간을 통하여 개흉하였으며 폐인대를 따라 주행하는 흉부대동맥에서 기시한 커다란 동맥을 발견하고 조심스럽게 박리하여 결찰 분리하였다. 병소는 좌하엽의 넓은 부위를 차지하고 있었고 일반적인 방법으로 하엽절제술을

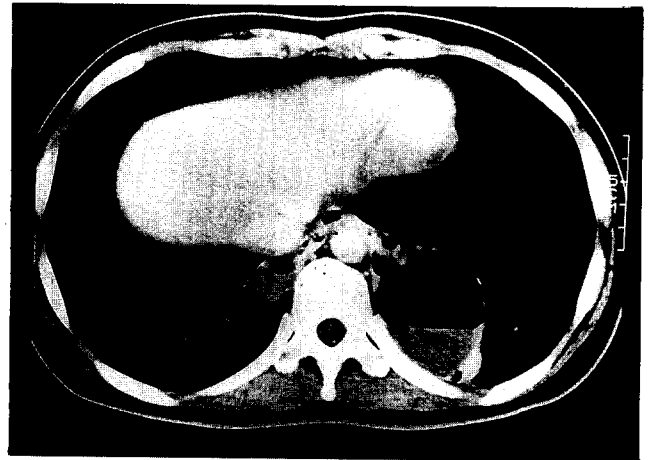


Fig. 2. Preoperative chest CT

시행하였다. 그후에 좌하엽으로 분지하던 혈관을 근위부와 우측으로 추적하여 박리함으로써 대동맥 조영촬영술에서 나타난 바와같이 횡격막 근처의 흉부대동맥에서 기형 동맥이 기시되는 것과 이 동맥이 다시 분지하여 분지된 동맥이 우하엽 방향으로 주행해 들어가는 것을 확인하고 삼



Fig. 3. Preoperative aortogram

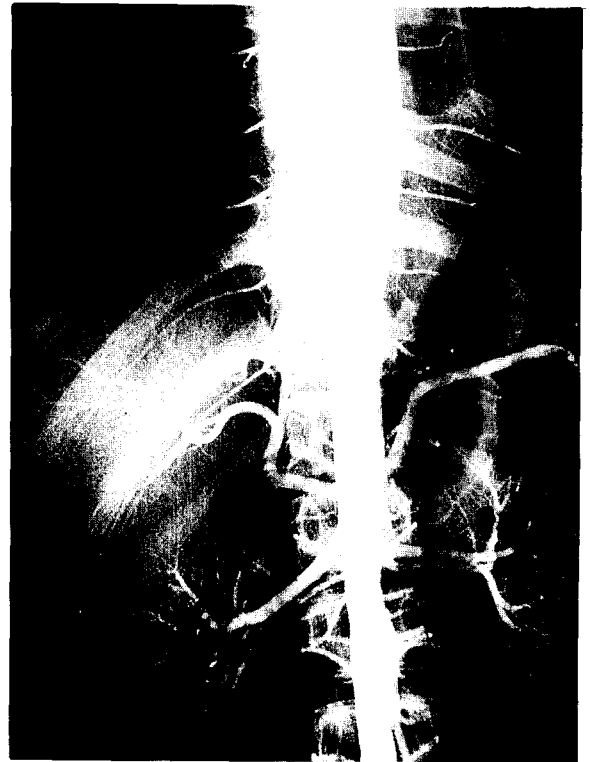


Fig. 4. Postoperative aortogram



Fig. 5. Postoperative pulmonary arteriogram

중으로 결찰하여 차단하였다. 정상적인 폐에서 혈전이나 색전에 의하여 폐동맥의 일부가 막히는 경우 약 10%의 드문 경우에서만 그 혈관이 분포하는 폐실질의 경색(허혈에 의한 조직의 괴사)이 발생하는데¹⁾ 그 이유는 폐실질 자체는 기관지동맥에 의하여도 혈액을 공급받고 있기 때문이다. 이 환자에서도 그 기전을 생각하여 임상적으로 별다른 문제가 없을 것으로 판단하고 우하엽으로 주행해가는 기형동맥을 결찰하여 차단한 것이다. 술후 칠일째 대동맥 조영술과 폐동맥 조영술을 시행하였다. 대동맥 조영술상 양측 격리폐로 가던 기형동맥의 혈류는 완전히 차단되었고 우측 하엽의 후저분절은 주위의 미미한 부행혈로를 통하여 매우 흐리게 조영되어 극소량의 혈액공급을 받고있는 소견이었다(Fig. 4). 폐동맥 조영술 상에서는 우측 하엽의 내측부 폐동맥의 크기가 약간 작은 소견외에는 정상이었다(Fig. 5). 환자는 술후 17일에 퇴원하였는데 흉부 단순 X-선 사진 소견과(Fig. 6) 이학적 소견 및 검사실 소견에서도 우측 격리폐의 괴사 소견은 볼 수 없었다.

이상과 같이 좌우 양쪽에 발생한 엽내형 폐격리증에서 주된 병변이 있는 폐엽을 절제하면서 증상이 없는 반대측의 격리폐로 가는 기형동맥의 혈류를 결찰 차단함으로써 한번의 수술에 의한 치유의 가능성을 기대할 수 있을 것으



Fig. 6. Postoperative chest PA & left lateral view

로 예상된다.

고 찰

폐격리증이란 태생과정중 비정상적인 폐분야가 형성되어 비정상적으로 대순환계에서 독립적인 혈액공급을 받고 발육하여 발생하는 비교적 드문 선천성 폐질환이다. 이 질환은 1777년 Huber 등이 처음으로 부검시 체동맥에서 폐격리조직으로 분포하는 기형동맥을 기술하였고, 1940년 Harris 등이 수술후 격리폐에 분포하는 비정상적인 동맥에 의한 출혈로 사망한 예를 보고한 이후 관심을 갖게 되었으며, 1946년 Pryce에 의해 폐엽내형과 폐엽외형으로 구분되었다. 발생빈도는 선천성 폐질환의 1.1%~6.4% 정도로 보고되고 있으며, 성별분포로는 남녀의 비가 2:1 또는 3:1 등으로 남자에 호발하며 우리나라의 경우 16:9로 보고된 바 있다. 발생위치를 보면 좌측이 우측보다 2~3배 더 호발하며 폐엽내형의 경우 대부분이 폐기저부에서 특히 후기저부에 발생하며 폐엽외형의 경우 폐기저부 이외에 심장주변, 종격동내, 심낭하부, 횡격막하부 및 복강내에서도 발생한다. 그밖에 아주 드물게 양측폐에 동시에 발생한

예도 보고되어 있다²⁻⁵⁾. 분류는 폐엽내형, 폐엽외형, 중간형태의 Hybrid형 등이 있으며 두 형이 공존하는 경우도 보고되어 있다. 이 중 폐엽내형이 약 85% 정도로 가장 많은 빈도를 나타낸다고 한다. 발생시기에 따라 태생시기의 극히 초기에 발생하면 엽내형격리로서 정상적인 폐홍막에 싸이고 정맥혈은 주로 폐정맥으로 환류되거나 드물게 기정맥, 반기정맥으로 환류되며 기관지와 교통이 있는 병소로 형성되어 증상은 기관지염, 기관지 확장증, 폐농양 등 2차 감염에 의한 증상 즉 고열, 기침, 가래, 각혈 등이 나타나며 그의 혈흉, 기흉 등의 증상과 위장관과 연결된 경우 연하곤란, 구토, 토혈 등의 증상을 보이기도 한다. 반면 태생시기에 홍막이 형성된 후 발생하면 엽외형격리가 되고 독립된 폐홍막으로 싸이고 동맥혈은 대순환계에서 직접 공급받고 있는 점은 엽내형과 같지만 정맥혈은 주로 기정맥이나 반기정맥으로 환류되며 드물게 쇄골하정맥, 늑간정맥, 폐정맥으로 환류되고 기관지와 교통이 거의 없으며 증상은 주로 신생아기에 큰 격리조직이나 동반된 기형에 의한 급성호흡장애로 나타난다. 비정상적인 체동맥은 흉부 대동맥에서 기시하는 경우가 대부분이며 그의 복부대동맥, 늑간동맥, 쇄골하동맥, 무명동맥 및 내유동맥에서 기

시하기도 한다. 진단은 단순 흉부 X-선 사진에서 폐엽내형의 경우 낭포성 병변의 소견을 보이는 경우가 많으며 수면상 음영을 동반하기도 한다. 그외에 균일 또는 비균일 음영, 폐렴성 침윤의 소견을 보이기도 하며 농흉을 동반하기도 한다. 폐엽외형의 경우 삼각형 모양의 균일한 음영이 종격동 근처에 나타난다. 본 증례에서는 장기간 반복되는 기관지염의 증세와 좌하엽 부위의 수면상 음영을 동반한 낭포성 병변이 있어 폐격리증을 의심해 볼 수 있었다. 그밖에 초음파검사, 컴퓨터 단층촬영, Lung perfusion scan 등이 진단에 도움이 되나 확진을 위해서는 대동맥조영술을 시행하여 기형동맥의 기시부 및 기형동맥의 수, 정맥환류의 위치 등을 확인하는 것이 좋다.

이상적인 치료는 절제술을 시행하는 것이나 증상이 없는 경우에는 논란의 대상이 되고 있어 증상이 나타나면 절제하자는 의견도 있고, 예방적으로 증상이 없더라도 수술하자는 의견도 있다. 특히 양측에 동시에 발생한 예에서는 Ennis 등²⁾은 주병변만 절제하고 증상이 없는 다른측의 격리폐는 절제하지 않았고, Roe 등³⁾은 주병변이 있는 격리폐를 절제한 후 예방적 목적으로 증상이 없는 격리폐도 단계적인 수술로 절제하는 것이 좋다고 주장하였다. 본 증례에서는 주병변인 좌측 격리폐는 절제하였고 증상이 없는 우측 격리폐는 절제하지 않고 기형동맥의 혈류만 차단하였다. 수술이 필요할 경우에는 술전 충분한 항생제 투여로 염증을 완화시킨 후 폐엽절제술, 격리폐절제술, 또는 폐구역절제술 등을 시행하는데 폐격리증은 기술한 바와같이 대동맥에서 기시하는 동맥분지에 의해 혈류를 공급받으므로 이 소견을 확인하지 않고 수술을 시행하다가 모르고 박리하는 도중 파열되면 대량의 출혈이 발생하고 출혈되는

혈관을 발견 처리하기가 어렵게 되어 매우 위험하게 될 수 있으므로 대동맥 조영술을 반드시 시행하여 확인해야 한다. 또한 기형동맥은 탄력성이 있고 죽상변화를 많이 동반하므로 주의해야 하며 동반된 기형에 대해서도 교정을 해야한다. 수술에 의한 합병증으로는 기형동맥에 의한 출혈, 유미흉 등이 있으며 기형동맥 출혈에 의한 사망이 약 3%로 보고되어 있다. 국내보고의 경우 출혈, 기관지 흉막루, 농흉, 유미흉 등의 합병증이 보고되어 있으며 출혈과 유미흉을 동반한 예에서는 사망하였다.

한양대학교 의과대학 흉부외과학교실에서는 세계적으로도 몇 예의 보고밖에 없는 매우 드문 질환인 양측에 동시에 발생한 엽내형 폐격리증을 치험하여 좋은 결과를 얻었기에 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Dabid CS Jr, Walter GW. *Pulmonary Embolism*. In: Dabid CS Jr, Frank CS. *Surgery of the Chest*. 5th ed. Philadelphia: W.B. Saunders Co. 1990;708-44
2. Ennis JT, Moule NJ, Woo-Ming M. *Intralobar pulmonary sequestration in association with bilateral systemic arterialization of the lung*. Br J Radiol 1972;45:945-8
3. Roe JP, Mack JW, Shirley JH. *Bilateral pulmonary sequestrations*. J Thorac Cardiovasc Surg 1980;80:8-10
4. Gerle RD, Jaretzki A III, Ashley CA, Berne AS. *CONGENITAL BRONCHOPULMONARY-FOREGUT MALFORMATION. Pulmonary sequestration communicating with the gastrointestinal tract*. N Engl J Med 1968;278:1413-9
5. Zumbro GL, Treasure RL, Seitter G, Strevey TE, Brott G, Green DC. *Pulmonary sequestration*. Ann Thorac Surg 1975;20:161-9