

기관지성 낭종을 동반한 선천성 식도 기관지루

조 성 우*·지 현 근*·안 현 성*·홍 기 우*·박 혜 림**

=Abstract=

Congenital Bronchoesophageal Fistula Associated with Bronchogenic Cyst - one case report -

Sung Woo Cho, M.D.*, Hyun Keun Chee, M.D.*, Hyun Sung Ann, M.D.*,
Ki Woo Hong, M.D.*, Hye Rim Park, M.D.**

Congenital bronchoesophageal fistula in the adult is rare, especially Braimbridge type III is very rare. We experienced congenital bronchoesophageal fistula associated intrapulmonary bronchogenic cyst. The patient was a 38-year-old male with chief complaints of coughing and abdominal pain 3 days before admission. Esophagogram revealed a fistulous tract between esophagus and cystic lesion in RLL. Fistulectomy and right lower and middle bilobectomy was performed. The postoperative course was uneventful.

(Korean Thorac Cardiovasc Surg 2001;34:104-7)

key words: 1. Bronchoesophageal fistula, congenital
2. Cyst, bronchogenic

증 례

환자는 38세된 남자로 어릴 적부터 잦은 상기도 감염으로 기침과 객담이 자주 발생하였으며 내원 3일 전부터 시작된 기침과 복통을 주소로 내원하였다. 환자는 과거력상 유동식을 먹은 후 발작적인 기침이 있었고 가족력상 특이할 만한 병력이나 기형은 없었다. 입원 당시 활력검사상 심박은 규칙적으로 76/min, 혈압 120/80 mmHg, 호흡수 20/min, 체온 36.5°C 이었고 이학적 검사상 의식은 명료하였고 청진상 천명음이나 수포음은 들리지 않았다. 심음은 규칙적이었으며 잡음은 없었다. 말초혈액검사, 전해질 검사, 동맥혈가스분석,

소변검사 소견 등은 정상범위내였고, 심전도상 정상 리듬을 보였다. 폐기능검사상 FEV1 3.47 liter/sec(90%), FVC 4.63 liter/sec(92%)로 정상소견을 보였다. 흉부단순 촬영상 우측 폐문부 아래에 4×5 cm 크기의 낭종성 병변이 있었고(Fig. 1) 흉부전산화단층촬영상 우폐하엽의 상분절에 4×3×5 cm 정도인 낭종이 있었고 그 안에는 공기와 액체로 차 있었다(Fig. 2). 복통의 원인을 찾기 위해 시행한 내시경검사상 절치부위에서 34 cm 하방에 직경 1 cm의 식도 누공이 발견되었고(Fig. 3) 바륨을 이용한 식도조영술상 8번째 흉추 높이에서 식도에서 우폐하엽으로 누공을 통한 바륨의 누출이 보였다(Fig. 4). 이상의 소견으로 식도 기관지루와 폐농양으로 진단

*한림대학교 흉부외과학 교실

Department of Thoracic & Cardiovascular Surgery, Hallym Univ., Medical College

**한림대학교 해부병리학 교실

Department of Anatomic Pathology, Hallym Univ., Medical College

논문접수일 : 2000년 6월 30일 심사통과일 : 2000년 11월 25일

책임저자 : 지현근(431-070) 경기도 안양시 동안구 평촌동 896, 한림대학교 성심병원 흉부외과. (Tel) 031-380-3816, (Fax) 031-380-3817

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.



Fig. 1. Preoperative chest PA shows 4×3 cm sized, round radiolucent lesion in right infrahilar area.



Fig. 2. Preoperative chest CT shows 4×3×5cm sized cystic lesion including air-fluid level in superior segment of RLL.

하에 개흉술을 시행하였다. 수술은 전신 마취 하에서 우측 6 번째 늑간을 통해 후방 외측 흉벽 개흉으로 식도와 우측 폐를 노출하였다. 늑막유착은 심하지 않았고 우폐하엽의 상분절에 주위 폐실질과 구별되는 직경 5 cm 크기의 단발성 낭종이 있었고 우폐중엽과 심한 유착을 보였고 낭종 주위로 혈관이 잘 발달되어 있었다. 8번째 흉추 높이에서 식도와 우

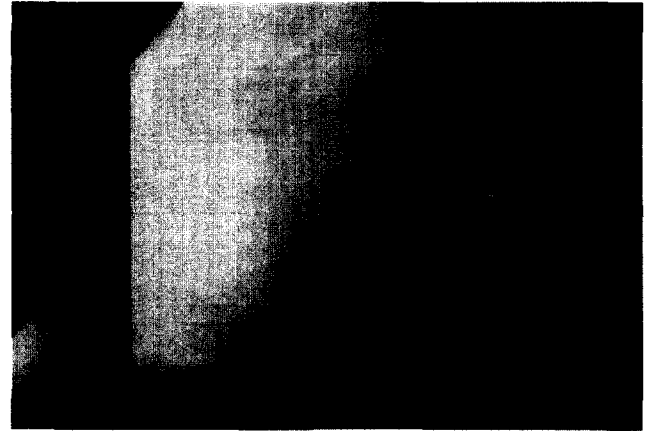


Fig. 3. Preoperative esophagoscopy shows fistula orifice.

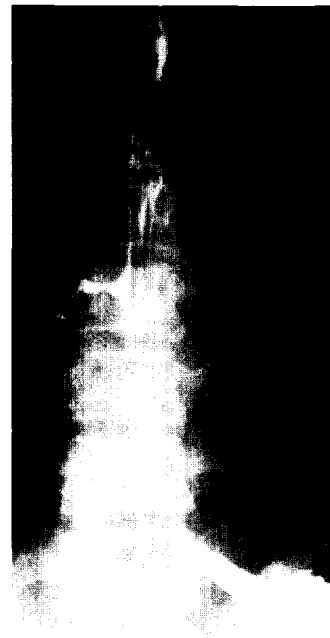


Fig. 4. Preoperative esophagogram shows leakage of barium from esophagus to right lower lung through fistula tract at T8 level.

폐하엽의 낭종을 거의 경사없이 연결하는 누공을 확인할 수 있었는데 직경은 1 cm 정도였고 길이는 2~2.5 cm 정도였다 (Fig. 5). 누공은 자동봉합기를 이용하여 절제하였고 식도 절단면은 벽측 늑막으로 덮어주었고, 우폐하엽과 우폐중엽 절제술을 시행하였다. 병리소견상 낭종은 단발성이었고 가성 섬유를 가진 원추 상피세포 즉 호흡상피로 벽을 이루고 있었고 그 안에는 노란 점액성의 액체가 있었고 낭종 주위의 폐실질은 불규칙한 세기관지 형태와 만성 염증세포의 침윤을 보였다(Fig. 6). 누공은 식도와 같은 편평상피로 피복되어



Fig. 5. Operative demonstration of fistula tract between esophagus(left) and cystic mass of RLL(right).

있었고 평활근층이 존재하고 있었으며 염증 소견은 보이지 않았다(Fig. 7). 수술 일주일후 실시한 식도조영술상 조영제의 누출을 보이지 않았고 술후 2주째 별다른 문제없이 퇴원하였다.

고 찰

식도 기관지루는 크게 선천성 및 후천성으로 구분되며 전자는 식도폐쇄를 동반하여 영유아기에 증상이 나타나 즉시 교정술을 시행하여야 하는 경우와 식도폐쇄를 동반하지 않으며 증상이 대개 잠행성으로 늦게 나타나 성인이 되어야 진단이 이루어지는 경우로 나누어지며 후천성인 경우는 다시 양성원인과 악성원인으로 나눌 수 있고 대부분은 식도, 기관지, 갑상선, 종격동 등의 악성종양에 의한 것이며 양성원인으로는 감염, 외상 등이 있다¹⁾. 루의 발생기전에 대해서는 발생학적 원인이라는 가설이 가장 신빙성이 있게 받아들여지고 있는데 이 가설에 따르면 기관이 자라 나오는 과정에서 태생 28일째 식도와 분리되는 도중에 기관-기관지분지와

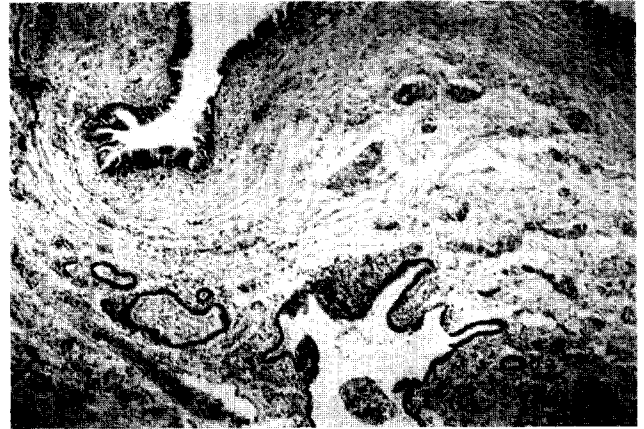


Fig. 6. Section from cystic lesion shows a large unilocular cyst lined with bronchus-type respiratory epithelia. Surrounding lung parenchyme shows irregular bronchiole-like structure and infiltration of chronic inflammatory cells(H&E, $\times 40$).

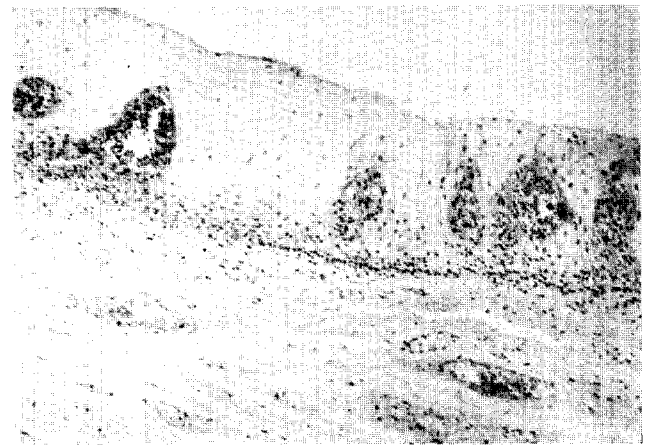


Fig. 7. Section from the fistulous tract shows a well-preserved lining of esophagus-type stratified squamous epithelia(H&E, $\times 100$).

식도의 접촉 관계가 지속되어 발생한다²⁾. 선천성 및 후천성 식도 기관지루의 병리조직학적 구별점은 점막상피가 편평상피이며 점막층과 근육층이 완전히 존재하고 주위 조직의 염증소견이나 신생물의 증거가 없어야 하는 것으로³⁾. 본 증례도 위와 같은 소견이과 일치하고 유동식을 섭취 후에 발작적 기침이 있었던 과거력으로 보아 선천성 식도 기관지루로 진단된다. Braimbride 등은 선천성 식도 기관지루의 형태를 다음 4가지로 분류하였는데⁴⁾ 제I형은 식도 계실이 존재하여 염증 등으로 천공되어 누관이 형성된 경우, 제II형은 식도와 기관지 사이의 직선상의 짧은 통로가 형성된 경우, 제III형은 폐엽내 낭종이 생겨 누관이 형성된 경우, 제IV형은 누관이 격리폐엽과 연결된 경우이다. 본 증례는 제III형에 해당되고 제III형은 국내의 매우 드물게 보고되고 있다^{5,6)}. 남녀간의 발

생빈도는 거의 차이가 없으며 임상증상은 유동식후 발작성 기침, 객혈, 농성객담 등이며 유동식후 발작성 기침이 배와 위 섭취시 소실되고, 잦은 상기도 감염, 재발성 폐렴, 기관지 확장증, 폐농양 등이 잘 동반된다. 진단은 대개 Barium을 이용한 식도조영술이며 연속식도촬영술이 가장 신뢰도가 높으며 그 외 기관지 조영술이 도움이 되며 식도경으로 개구부를 확인할 수 있다. 치료는 누공절제술과 더불어 폐조직이 손상된 경우 이를 동시에 절제하는 것이다. 수술 결과는 대부분 좋은 경과를 보이며 합병증은 드문 것으로 보고되고 있다.

기관지성 낭종은 선천성 폐질환으로 보통 양성낭종이고 폐실질내 혹은 종격동에 발생되나 드물게는 심낭, 횡격막, 경부 그리고 복부내에서도 발생할 수 있다. 기관지성 낭종은 태생 4~6주경에 폐원기 발생이상으로 인한 경우로 폐원기가 분화함에 따라 원시전장으로부터 완전분리가 이루어지는데 이 과정에 결함으로 식도와 교통하거나 근육내 생긴 기관지성 낭종의 증례가 보고되고 있다⁷⁾. 그러나 본 증례와 같이 식도와 연결된 폐내형 기관지성 낭종은 보고된 바 없다. 기관지성 낭종은 대개 임상증상이 나타나지 않기 때문에 우연히 발견되는 수가 많으나 유소아기의 기관지성 낭종인 경우에는 기관 및 기관지 압박으로 인한 호흡곤란이나 청색증의 증상이 나타날 수도 있고 폐감염의 증상, 객혈 등을 보일 수 있다⁸⁾. 진단은 임상증상과 흉부단순촬영으로 가능하며 흉부단순촬영상 경계가 분명하고 석회화가 없이 대개 하나의 원형 또는 난원형의 종괴음영으로 나타나고 흉부전산단층촬영과 식도조영술 등이 감별진단에 도움이 된다. 확진은

조직학적 검사가 필요한데 병리조직학적으로 기관지성 낭종은 위중층원주상피로 피복되어 있고 연골을 포함하는 섬유조직 및 기관지선이 보인다. 본 증례에서는 연골조직과 기관지선은 찾을 수 없었다. 치료는 증상이 있는 경우나 증상이 없는 경우라 할지라도 악성종양과의 감별, 크기가 증가함에 따른 주위 조직의 압박가능성 및 악성화 등의 가능성을 고려하여 외과적 절제가 시행되어야 한다. 저자들은 폐내형 기관지성 낭종과 연결된 선천성 식도 기관지루를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Hendry P, Crepeau A, Beatty D. *Benign bronchoesophageal fistula*. J Thorac Cardiovasc Surg 1985;90:789-91.
2. Osinowo O, Harely H, Janigan D. *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*. Thorax 1983;38:138-42.
3. Chu W, Mullen JL. *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*. JAMA 1978;239:855-6.
4. Braimbridge M, Keith HI. *Esophagobronchial fistula in chest*. Thorax 1965;20:226-33.
5. 허 용, 강경훈, 문경훈, 등. 성인의 선천성 식도 기관지루 6례 보고. 대흉외지 1988;21:594-600.
6. George L, Christophoros K, Achilles L. *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*. Eur J Cardiothorac Surg 1990;4:451-3.
7. 이철주, 최원희, 하정옥. 식도와 연결된 선천성 기관지성 낭종의 치험 1례 보고. 대흉외지 1984;17:505-10.
8. Rogers LF, Osmer JC. *Bronchogenic cysts, A review of 46 cases*. Am J Roentgenol 1964;91:273.

=국문초록=

성인의 선천성 식도 기관지루는 드문 질환이고 그 중 Braimbridge 제III형은 매우 드물다. 본 교실은 폐내형 기관지성 낭종을 동반한 선천성 식도 기관지루(제III형) 1례를 경험하였다. 환자는 38세 남자로 내원 3일전부터 시작된 기침과 복통을 주소로 내원하였다. 식도조영술상 식도와 우폐하엽의 낭성 병변사이에 누관이 발견되었다. 누공절제술과 우폐하엽과 우폐중엽 절제술을 시행하였고 수술후 경과상 별 문제가 없었다.

중심 단어: 1. 선천성 식도 기관지루
2. 기관지성 낭종