

만성 농흉으로 오진되었던 좌측 주기관지식도루

— 치험 1례 —

이 두 연* · 조 현 민* · 정 은 규* · 함 석 진* · 김 상 진** · 이 응 석*

= Abstract =

Left Bronchoesophageal Fistula Misdiagnosed as Chronic Empyema Thoracis

Doo Yun Lee, M.D.*, Hyun Min Cho, M.D.*, Eun Kyu Joung, M.D.*,
Suk Jin Ham, M.D.*, Sang Jin Kim, M.D.**, Eung Sirk Lee, M.D.*

Congenital bronchoesophageal fistula is a rare anomaly that may cause fatal complications if it goes unnoticed for many years. This anomaly may have various symptoms such as respiratory infections, coughing bouts when eating or drinking and even hemoptysis. Surgical resection is the treatment of choice and is definitive in almost cases. We report a case of type I congenital bronchoesophageal fistula misdiagnosed as chronic empyema thoracis with literature review.

(Korean Thorac Cardiovasc Surg 2002;35:68-72)

Key words: 1. Empyema
2. Bronchoesophageal fistula

증 례

9세 된 여아로 약 2년 간의 만성적인 기침, 1년 간의 발열 및 6개월 간의 호흡곤란을 주소로 본원에 입원하였다. 환아는 과거력상 2000년 4월에 발열 및 심한 기침과 객담을 주소로 중국 OO병원 방문하여 폐렴 및 결핵성 늑막염 의심 하에 항결핵 약물치료 시작하였으나 증상은 호전되지 않았고 항결핵 약물에 대한 부작용인 소화불량 등이 발생하여 항결핵 약물복용을 중지하였다. 그 후 증상은 더욱 악화되었으며 계

속적인 발열, 기침, 피가 섞인 객담, 전신 쇠약감을 호소하여 좌측 만성 농흉 진단 하에 2001년 2월 폐쇄성 흉관삽관술을 시행하였다. 흉관삽관술 후 6개월간 매일 20~30cc의 농이 흉관을 통해 배농되었으며 지속적인 기침, 발열, 호흡곤란과 식욕부진 등으로 체중이 15kg으로 줄고 경제적인 문제로 인해 흉관 삽입상태로 가정치료를 할 수밖에 없어 전신상태가 매우 악화되고 있었다.

2001년 7월 본 의과대학 영동세브란스병원 의료선교단의 무의촌 진료에서 배농이 불충분한 만성 농흉으로 진단 받고

*연세대학교 의과대학 영동세브란스병원 흉부외과

Department of Thoracic & Cardiovascular Surgery, YoungDong Severance Hospital, Yonsei University Medical College

**연세대학교 의과대학 영동세브란스병원 진단방사선과

Department of Diagnostic Radiology, YoungDong Severance Hospital, Yonsei University Medical College

†본 논문은 2001년 10월 월례집담회 구연된 내용임.

논문접수일 : 2001년 10월 29일 심사통과일 : 2001년 11월 22일

책임저자 : 이두연(135-270) 서울시 강남구 도곡동 146-92, 영동세브란스병원 흉부외과학 교실, (Tel) 02-3497-3380, (Fax) 02-3461-8282

E-mail: dylee@yumc.yonsei.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

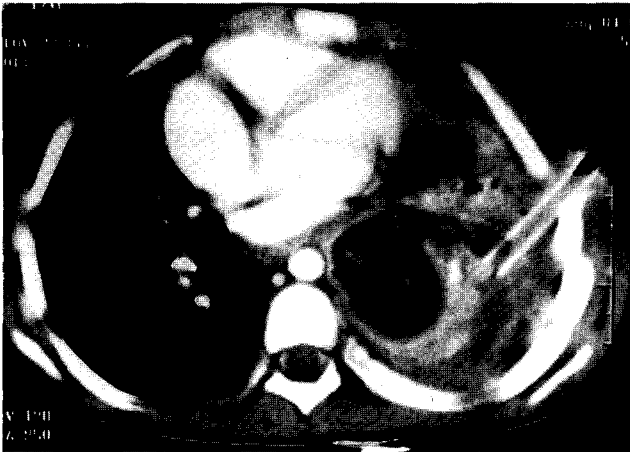


Fig. 1. Preoperative chest CT demonstrates suspicious empyema cavity with destroyed lung tissue.

보다 적절한 치료를 위해 2001년 8월 본원으로 후송되게 되었다. 2001년 8월 입원당시 환자의 키는 130cm(25~50 백분위수), 체중은 17kg(25 백분위수 미만)으로 발육이 저조한 상태였으며 활력증후는 혈압 97/58mmHg, 맥박 115회/분, 호흡수 30회/분, 체온 37.8℃이었다. 입원 당시 시행한 혈액검사 결과 Hb/Hct 9.4/31.7, WBC 16740, Platelet 753000, ESR 60으로 급성감염 소견을 보였고 Total protein/Albumin 5.0/2.8, Ca/P 7.8/4.8, SGOT/SGPT 27/12로 심한 단백질-칼로리 영양결핍(Protein-Calorie Malnutrition) 상태를 나타내고 있었다. 약 2주간의 항생제 투여 후 발열증상은 호전되었으며 입원당시 촬영한 단순 흉부촬영 및 흉부 전산화 단층촬영(Fig. 1) 소견상 배농이 불량한 만성 농흉과 이로 인한 폐실질의 파괴소견을 보여 좌측 흉막전폐절제술(pleuropneumectomy)을 예정하였다.

2001년 8월 기관삽관 전신마취 하에 우측 양와위 체위를 취한 다음 수술부위를 베타딘으로 멸균 소독하고 통상적인 좌후측방 개흉술을 시행하였다. 늑막유착이 심하여 6번째 늑골을 절제한 후 개흉하여 늑막박피술 및 좌폐하엽 절제술 받았으며 심한 흉강 내 농흉 소견과 해부학적 구별이 어려운 심한 폐실질 염증 소견으로 인해 함몰되고 경색된 좌상엽은 남겨둔 채 정확한 진단 후 재수술을 계획하고 수술을 마쳤다. 수술 당시에 기관삽관을 오른쪽 주기관지까지 진행하였으나 수술을 마치고 난 다음 기관삽관을 기관까지 철수시킨 후 간헐적인 공기누출이 흉관을 통해 나타나게 되었다. 수술 후 3일째 환이는 물이나 음식을 섭취한 후 좌측 흉강 내에 있는 흉관을 통해 그대로 배액되는 양상을 보여 수술 후 9일째 식도조영술을 촬영하였으며 식도계실의 끝부분과 좌측 주기관지 원위부 간의 기관지식도루 형성이 발견되었다(Fig. 2). 약 4주간의 항생제 투여와 흉강 내부세척



Fig. 2. Esophagogram after the 1st operation shows communication between tip of esophageal diverticulum and distal portion of left main bronchus

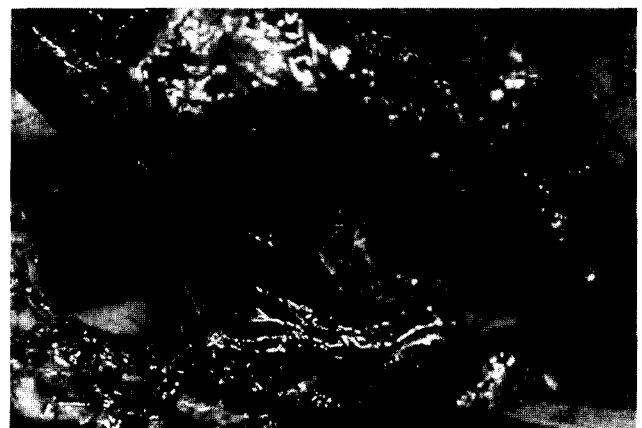


Fig. 3. Intraoperatively, the fistulous tract between esophagus and left main bronchus was noted.

후 다시 2001년 9월 기관삽관 전신마취 하에 우측 양와위 체위에서 이전의 좌후측방 개흉술 부위를 통해 재수술을 시도하였다. 심한 유착으로 인해 5번째 늑골을 절제하고 개흉한 다음 기관지식도루 부위를 박리하여 확인하고 난 후(Fig. 3) 남겨진 좌상엽을 완전절제하여 완성 전폐절제술(completion pneumonectomy) 시행하였으며 중부 식도에서 파열된 식도계실 주위를 박리하고 노출하여 자동봉합기로 봉합하였다(Fig 4). 봉합부위는 피브린 아교(fibin glue)로 도포하고 종격동 늑막으로 보강하였다.

재수술 후 7일째 시행한 식도조영술(Fig. 5) 상 기관지식도루는 관찰되지 않았으며 기침, 발열, 호흡곤란 등의 증상



Fig. 4. Esophageal diverticulum was divided with TA stapler after dissection



Fig. 5. Esophagogram after the 2nd operation reveals no residual communication between esophagus and bronchus and esophageal diverticulum.

도 거의 소실되었다. 그 후 음식섭취나 운동 시 흡인이나 호흡곤란 등의 특별한 문제없이 지냈으나 재수술 후 18일 쯤까 지 미열이 있어 흉강천자(thoracocentesis)를 시행하였는데 농(pus)이 흡인되어서 폐쇄식 배액술(closed drainage) 상태로 유지하였다. 흉강천자 시 채취한 흡수의 세균 배양검사 결과 약제내성 포도상 구균(MRSA)이 동정되어 개방성 배액술(open drainage)로 바꾼 후 퇴원하였으며 별다른 합병증 없이 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

소아 및 성인에서 식도와 호흡기계(respiratory system) 사이의 비정상적인 누공 형성은 매우 드물게 나타나며 그 원인은 선천성과 후천성으로 나눌 수 있는데 후자는 다시 양성과 악성으로 구분된다. 1965년 Braimbridge 및 Keith등¹⁾은 선천성 기관지식도루를 4가지 유형으로 분류하였는데 제 1형은 넓은 경부(wide-neck)를 가진 선천성 식도계실을 동반한 경우, 제 2형은 식도와 기관지가 짧은 누공성 통로(fistulous tract)로 연결된 경우, 제 3형은 식도로부터의 누공(fistula)이 폐엽에 있는 낭종(cyst)과 연결되어 있는 형태, 제 4형은 식도의 누공이 폐격리증(pulmonary sequestration)과 연결된 형태이다. 이 중에서 제 4형의 경우는 선천성 기관폐-전장 기형(bronchopulmonary-foregut malformation)의 한 형태로 생각할 수 있으며 Smith등²⁾은 선천성 기관지식도루의 형성과정을 발생학적 기준에서 기관의 급속한 연장과 식도분리가 일어나는 시기에 기관 및 기관지와 식도간의 지속적인 접촉에 의해 일어나는 것으로 설명하였다. 또한 국소적인 자궁내 염증에 의해 배아 기관지(embryonic bronchus)와 식도 사이에 유착이 일어난 결과로 설명하기도 한다. 선천성 기관지식도루의 발생기전에 대한 이러한 가설은 간기관지(stem bronchi) 원위부에서 식도로부터 기관이 분리되는데 관여하는 측방 전장판(lateral foregut plate)의 미융합에 의해 발생하는 선천성 기관지식도루(tracheoesophageal fistula)의 발생기전과는 차이가 있다. 1990년 Risher등³⁾은 3형과 4형은 매우 희귀하여 전체 예의 각각 5%와 3%라고 보고하였고 1985년 Kurashige등⁴⁾은 3형이 가장 많아 32.8%라고 하였으며 1995년 김등⁵⁾은 1형과 4형은 각각 15%이지만 3형은 없었다고 하였다.

일반적으로 선천성 기관지식도루로 진단하기 위해서는 식도와 기관지 주위에 염증소견이 없어야 하며 주변에 유착된 림프절이 없고 기관지식도루에는 점막층 및 뚜렷한 근점막이 존재하여야 한다. 특히 점막층은 편평상피나 원주상피로 덮혀져 있어야 하며 어떤 경우에는 기관지식도루 내에서 식도부위의 편평상피로부터 호흡기의 원주상피로 이행하는 소견을 관찰할 수도 있다고 하였다^{2,3)}. 선천성 기관지식도루의 위치에 대해서는 Risher³⁾, Kurashige등⁴⁾에 의하면 누공의 가장 흔한 폐부위는 우하엽의 상구역이라고 하였으며 Shimada등⁶⁾은 기관분기줄 하부의 식도 주위는 근육층이 얇고 연조직이 거의 없어 우폐상엽의 상구역 기관지와 누공이 잘 형성된다는 가설을 제시하였다. 지금까지 보고된 증례들을 살펴보면 거의 모든 예들이 우측 폐하엽 기관지와 중부 식도 사이의 기관지식도루였으며 좌측 폐기관지와 식도 사이의 누공은 우측에 비해 드물게 관찰되어 김등⁵⁾은 13례 중 3례에서 좌하엽의 상구역 기관지와 식도 사이의 기관지식도루

를 보고한 바 있고 특히 식도와 좌측 주기관지 사이의 누공은 매우 희귀하여 2000년까지 2례가 보고되었다.

선천성 기관지식도루(bronchoesophageal fistula)의 발생빈도는 선천성 기관지식도루(tracheoesophageal fistula)의 25~50% 이하로 특히 식도폐쇄증의 동반 없이 발생하는 경우에는 증상이 늦게 나타나므로 약 75%의 환자에서 15세 이후에 발견된다고 하였고⁷⁾ Risher, 김 등에 의하면 이들 선천성 기관지식도루의 발생빈도는 남녀 성별에 따른 뚜렷한 차이가 없으며 20대에 가장 흔히 발견된다고 보고하였다^{3,6)}. 이와 같이 기관지식도루의 증상이 상당히 늦게 나타나는 이유로는 (1) 식도 조직의 주름(fold) 혹은 조각 판막(flap valve) 역할로 기관지식도루가 폐쇄되는 경우 (2) 기관지식도루 내에 얇은 막이 존재하다가 막이 파열되는 경우 (3) 식도에서 기관지로의 주행이 하방에서 상방으로 향하여 있어 식도내 내용물이 기관지로의 이동이 쉽지 않다 (4) 환자가 빈번한 상기도 감염에 적응이 잘되어 있어 증상호소가 늦다 (5) 기관지식도루 벽의 횡문근의 연속 등이 있다^{2,5)}. 기관지식도루가 있는 경우 만성적인 기침, 반복적인 호흡기 감염 등의 증상이 있거나⁸⁾ 특히 액체종류의 음식섭취 시 발작적 기침이나 질식이 흔하며⁹⁾ 특별한 체위에서 더욱 악화된다고 한다.

본 환자의 경우도 지속적인 기침, 빈번한 상기도 감염 및 폐렴 등이 있었으며 평소에 왼쪽으로 누우면 증상이 심해져 오른쪽으로 눕기를 선호하였는데 이러한 것은 왼쪽 기관지와 식도 사이의 기관지식도루 때문이었다고 생각된다. 기관지식도루를 진단하기 위해서는 바륨(Barium)을 이용한 식도조영술 촬영이 크게 도움이 되나 본 증례의 경우 기관지식도루를 의심하지 않은 상태에서 심한 염증으로 인한 폐실질의 완전 파괴 및 만성농흉으로 진단하고 수술에 임하게 되어 수술 전 식도조영술을 시행하지 않았다. 환자는 수술 전에 식사를 할 때 물이나 음식섭취에 의한 심한 기침 혹은 질식 등의 증상은 없었으나 첫 수술 후 경구섭취를 시작하면서 임상적으로 의심되어 시행한 식도조영 촬영소견에서 좌측 주기관지와 식도계실 사이에 기관지식도루가 동반된 것을 확인하게 되었는데 이는 심한 폐농양이나 농흉에 의한 식도파열에 의해 갑자기 증상이 나타난 것이 아니라 선천적인 기관지식도루로 인해 서서히 증상이 발생하였고 식도가 보다 높은 위치의 좌측 주기관지와 연결되어 음식물의 기관지로의 역류가 많지 않아 기관지식도루 증상이 미미하였기 때문인 것으로 생각된다.

기관지식도루 수술은 기관지식도루를 박리하고 절제한 다음 식도와 기관지 파열부위를 봉합하는 것이 원칙이다.²⁾ 그러나 기관지 식도루로 인한 재발성 폐렴, 폐농양 및 농흉 등이 합병된 경우에는 손상된 폐실질의 절제술과 식도봉합수술이 병용되어야 하므로 저자들은 농흉 및 폐농양이 동반된

기관지식도루 환자에서 전폐절제술과 식도봉합수술을 동시에 시행하였다. 본 증례의 경우 폐농양 및 만성 농흉이 동반된 기관지식도루로 반복된 심한 염증으로 인하여 선천성 기관지식도루와 후천성 기관지식도루의 감별이 매우 어려웠다. 물론 제 2형의 기관지식도루는 비교적 주위에 염증소견 및 림프절비대 소견이 없고 대부분 누공 내에 점막층 혹은 근점막층이 존재하므로 선천성으로 형성된 것임에 이견의 여지가 없으나 제 1형은 선천성 식도계실의 염증과 천공으로 인해 후천성으로 기관지식도루가 발생할 수 있으며 또한 3형과 4형에서도 장기간의 폐렴, 폐농양 등으로 식도와 누공이 형성될 수가 있다. 그러나 본 증례의 경우 증상이 없던 시기의 단순 흉부촬영 소견 상 폐농양이나 폐격리증 소견을 발견할 수 없었기 때문에 3형과 4형은 제외될 수 있었으며 기관지와 식도간의 거리가 상당히 떨어져 있어 2형 역시 감별진단에서 제외되었다. 결론적으로 환자는 빈번한 호흡기 감염 등으로 주변의 림프절이 커져있고 기관지식도루 내의 점막층 및 근육층이 염증으로 심하게 파괴되어 상기 기술된 모든 범주를 설명할 수는 없었으나 선천성 식도계실이 있었으며 증상이 나타나는 시기에 식도계실과 기관지가 염증으로 유착되면서 천공되어 기관지식도루가 발생한 제 1형으로 생각되어진다.

참 고 문 헌

1. Braimbridge MV, Keith HI. *Oeshopago-bronchial fistula in the adult*. Thorax 1965;20:226-331.
2. Smith DC. *A congenital broncho-esophageal fistula presenting in adult life without pulmonary infection*. Br J Surg 1970;57:398-400.
3. Risher WH, Arensman Rm, Occsner JL. *Congenital bronchoesophageal fistula*. Ann Thorac Surg 1990;49:500-5.
4. Kurashige M, Kusachi S, Kato O, Kamiya K, Ito K, Atobe T. *Congenital esophagobronchial fistula in a 39-year-old male*. Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi 1985;33:922-7.
5. Kim JH, Park KH, Sung SW, Rho JR. *Congenital bronchoesophageal fistula in adult patients*. Ann Thorac Surg 1995;60:151-5.
6. Shimada T, Abo S, Kitamura M, Hashimoto M, Shikama T, Kimura Y. *A case of congenital esophagobronchial fistula communicated between esophageal diverticulum and left main bronchus in the adult-a review of 47 cases in the Japanese literature*. Nippon Kyobu Geka Gakkai Zasshi 1992;40:2102-6.
7. Chu W, Mullen JL. *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*. JAMA 1978;239:855-6.
8. Azoulay D, Regnard JF, Magdeleinat P, Diamond T, Rojas-Miranda A, Levasseur P. *Congenital respiratory-esophageal fistula in the adult : report of nine cases and review of the literature*. J Thorac Cardiovasc Surg 1992; 104:381-4.

=국문초록=

선천성 기관지식도루는 매우 드문 질환으로 진단이 늦어질 경우 치명적인 결과를 초래할 수 있다. 이러한 기형은 호흡기 감염, 음식섭취나 물을 마실 때의 발작적 기침, 혈담 등의 증상을 나타낼 수 있다. 수술적 절제는 거의 모든 환자에서 근치적 치료이다. 본 병원에서는 만성 농흉으로 오진된 제 1형 선천성 기관지식도루를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

- 중심 단어: 1. 만성 농흉
2. 기관지식도루