

코일 색전술로 치료한 15세 소아의 폐 격리 1례

울산대학교 의과대학 서울아산병원 소아과, 방사선과*

김효빈 · 김자형 · 이종승 · 홍수중 · 성규보*

A Case of Coil Embolization in a 15-year-old Child with Pulmonary Sequestration

Hyo Bin Kim, M.D., Ja Hyung Kim, M.D., Jong Seung Lee, M.D.
Soo-Jong Hong, M.D. and Gyou Bo Sung, M.D.*Department of Pediatrics and Radiology*, College of Medicine,
Ulsan University, Asan Medical Center, Seoul, Korea

Pulmonary sequestration is a rare congenital mass of nonfunctional pulmonary tissue that lacks a normal-connection with the bronchial tree or the pulmonary arteries. It is clinically asymptomatic but when it is complicated with recurrent infection, it needs to be treated. Conventionally, surgical removal was recommended, but these days we are trying new and less invasive techniques, such as arterial embolization. There were several reports about successful cases of pulmonary sequestration treated by embolization, but mostly all of them were done to newborns or infants. We report a case of a 15-year-old boy with an asymptomatic pulmonary sequestration on whom was performed coil embolization, and in the follow-up computed tomography(CT), the size of the lesion was decreased. He did not suffer severe respiratory symptoms. (J Korean Pediatr Soc 2003;46:385-388)

Key Words : Pulmonary sequestration, Coil embolization, Child

서 론

폐 격리(pulmonary sequestration)는 폐실질과 분리되어 있으면서 대동맥에서 직접 혈액 공급을 받는 비정상적으로 존재하는 폐조직으로¹⁻⁴⁾, 증상이 없을 수도 있으나 반복적으로 호흡기 감염을 일으키게 되는 경우 치료를 필요로 한다. 고식적인 치료 방법은 수술로 제거하는 방법²⁾이지만 소아에서는 동맥 색전술이 비침습적인 새로운 치료방법으로 시도되고 있다^{5, 6)}. 저자들은 15세 남아에서 동맥 색전술을 이용하여 폐 격리를 치료한 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 아 : 고○○, 남아, 15세

주 소 : 우연히 발견된 단순 흉부 방사선 사진상의 좌측 폐 하엽의 기체-액체층을 보이는 경화 소견

현병력 : 환아는 잦은 고열을 동반한 감기 이외에는 건강하게 지내다가 내원 2개월 전 증상이 없는 상태에서 학교 신체검사 시 시행한 단순 흉부 방사선 사진에서 좌측 폐야에 경화소견이 발견되어 검사와 치료를 위해 본원으로 전원되었다. 환아는 열은 없으나 기침과 가래 증상을 보였다.

과거력 및 가족력 : 환아는 어릴 때부터 심한 고열이 동반되는 감기 증상이 자주 있었던 것 외에는 특이 병력이 없었고 가족력에서도 특이 질환은 없었다.

진찰 소견 : 입원 당시 체온은 36.2℃, 맥박수 90회/분, 호흡수 24회/분, 혈압 134/72 mmHg이었고, 체중 115 kg(>97 백분위수), 신장 183.5 cm(>97 백분위수)이었다. 건강하게 보였으며 입주위나 손톱과 발톱에 청색증은 관찰되지 않았다. 청진 소견상 호흡음이 거칠면서 라음이 들렸으며 좌측 폐 하엽에 호흡음이 감소되었고, 심음은 규칙적이고 심잡음은 청진되지 않았다.

검사 소견 : 말초혈액 소견상 백혈구수 12,900/mm³, 혈색소 14.6 g/dL, 적혈구 용적치 43.1%, 혈소판수 431,000/mm³였고, 프로트롬빈 시간 120%(INR 0.89), 활성화 부분 트롬보플라스틴 시간 41.3초였다. 전해질 검사와 소변검사는 정상이었으며, GOT 18 IU/L, GPT 15 IU/L, BUN 11 mg/dL, creatinine 0.8 mg/dL였다.

방사선 검사 : 단순 흉부 방사선 사진과 단층촬영에서는 좌측

접수 : 2002년 10월 8일, 승인 : 2002년 11월 15일
책임저자 : 홍수중, 울산의대 서울아산병원 소아과
Tel : 02)3010-3379 Fax : 02)473-3725
E-mail : sjhong@amc.seoul.kr

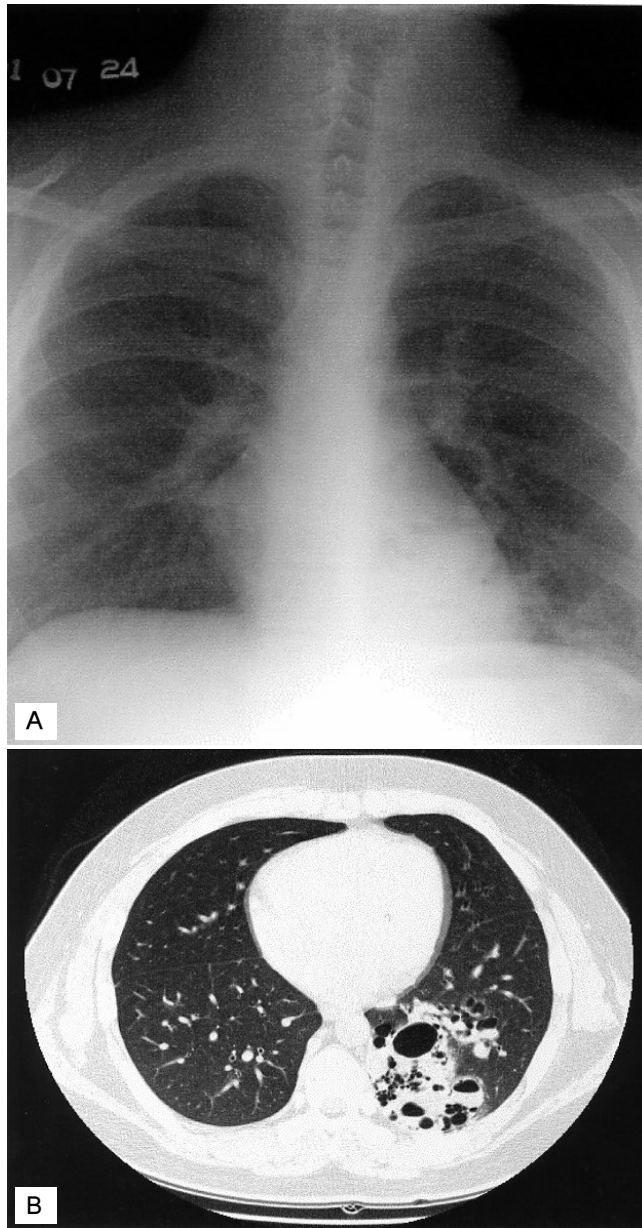


Fig. 1. Chest X-ray(A) and high resolution computed tomography(HRCT)(B) shows multiple cystic lesions with air-fluid level in posterior basal segment of left lower lobe.

폐 하엽에 기체-액체층을 보이는 경화 소견이 보였고(Fig. 1A, 1B), 폐 격리를 공급하는 흉부 대동맥에서 분지된 동맥과 좌하 폐정맥으로 배액되는 정맥이 발견되었다(Fig. 2A, 2B).

동맥 조영술 소견 : Pig-tail 카테터를 이용하여 혈관 조영술을 시행하였고 흉부 대동맥 아래쪽에서 궤도를 벗어나 좌측 폐 하엽으로 향하는 공급 동맥이 있었으며 좌하폐정맥을 통해 배액되는 내대엽성 폐 격리가 진단되었다.

치료 및 경과 : 동맥 조영술을 시행한 결과 내대엽성 폐 격리가 진단되어 4개의 코일과 젤폼을 이용하여 동맥 색전술을 시행

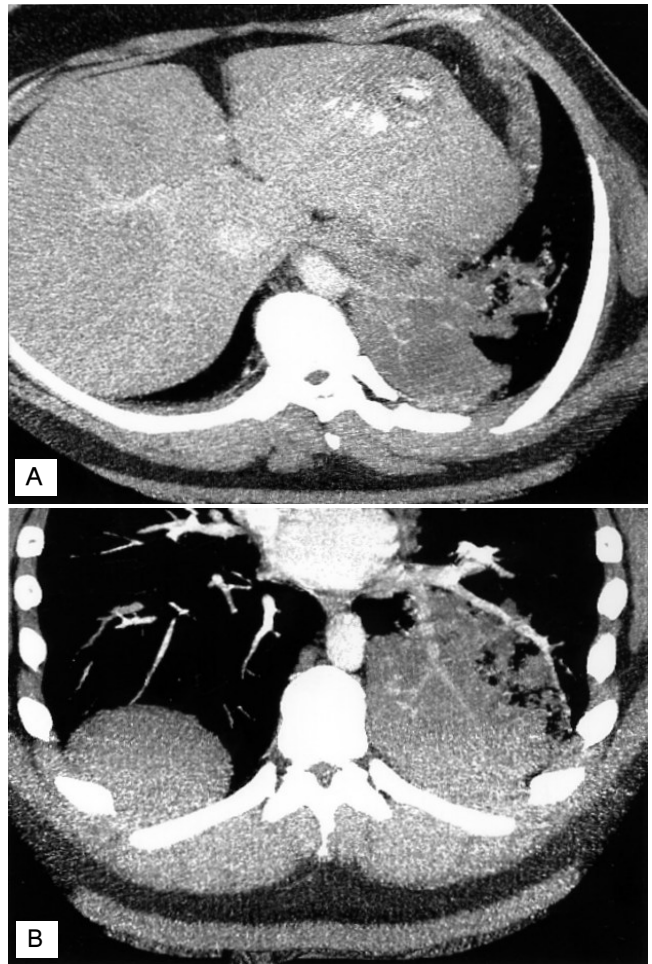


Fig. 2. Enhanced CT scan of the chest shows feeding artery (A) of the intralobar pulmonary sequestration which is branching from the thoracic aorta. The venous drainage of the pulmonary sequestration is to left inferior pulmonary vein(B).

하였고 시술 후에 시행한 동맥 조영술상에 폐 격리로 혈액을 공급하는 동맥은 없었다. 시술 2일 후부터 열과 흉통을 호소하였고 C 반응성 단백질이 30 mg/dL로 증가하였으나, 시술 6일 후에 열과 C 반응성 단백질이 3 mg/dL로 감소되어 퇴원하였다. 색전술 시행 1개월, 5개월, 12개월 후에 시행한 흉부 단층촬영에서는 낭종과 섬유화 조직은 남아 있으나 크기는 감소되었으며(Fig. 3A, 3B) 환아는 호흡기 감염의 합병증 없이 지내고 있다.

고 찰

폐 격리는 드문 선천성 기형으로, 혈관 기형과 동반된 정상 폐조직과 분리되어 존재하는 비기능성 폐조직이다. 형태는 내대엽성(intralobar form)과 외대엽성(extralobar form)으로 나뉘며 내대엽성 폐 격리는 정상 폐조직과 같은 내장 흉막 내에 위치하고 폐동맥이 아닌 흉부 대동맥이나 복부 대동맥에서 주로 혈액을 공급받고 정상 하폐정맥으로 배액되는 형태로 나타나고 60%

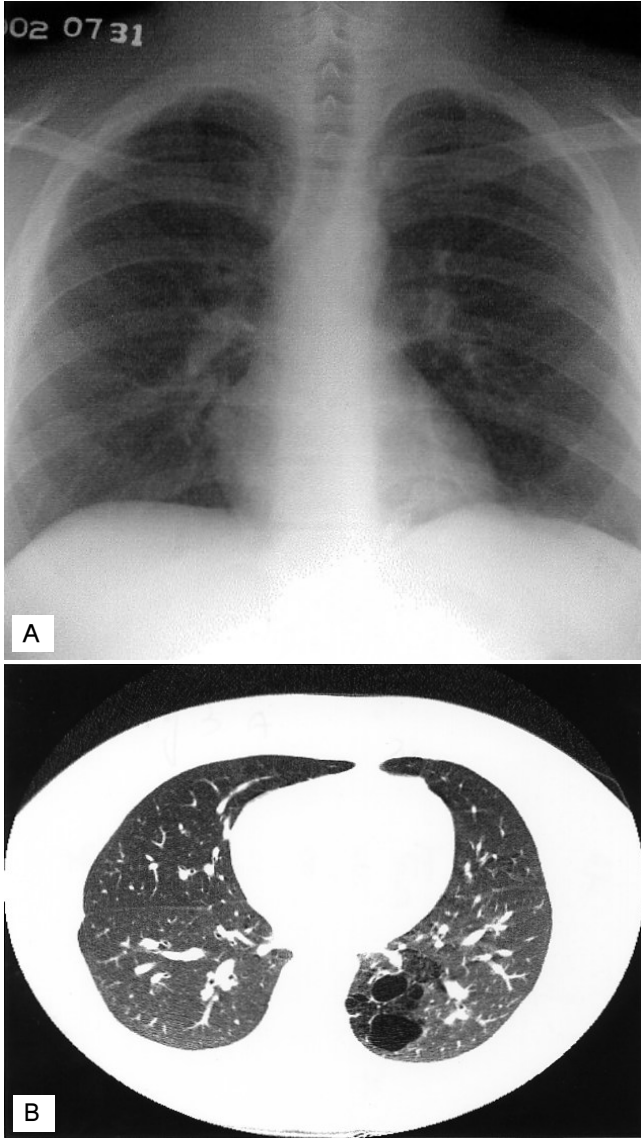


Fig. 3. Last chest X-ray(A) and Chest CT(B) was taken at 12 months after embolization. Linear infiltration which was surrounding the cysts in left lower lobe was decreasing.

에서 좌측 폐에 발생한다. 외대엽성 폐 격리는 스스로의 흉막으로 분리되어 있으면서 복부 대동맥에서 혈액을 공급받고 기성 정맥으로 배액되며, 남녀비는 3:1이고 90%에서 좌측 폐에 발생한다. 또한 횡격막 탈장, 기관지성 낭종 등의 선천성 기형을 65%에서 동반하기도 한다^{1,2,6-8}. 본 증례는 좌측 폐 하부에 생긴 흉부 대동맥에서 혈액 공급을 받고 좌폐하정맥으로 배액되는 내대엽성 폐 격리를 가진 환아였고 동반된 선천성 기형은 없었다.

폐 격리는 진단 기술이 발달하면서 산전 초음파에서 발견되는 경우가 증가하고 있으나^{1,5,9}, 대부분 신생아의 경우에 출생 후 호흡곤란을 보여 시행하는 단순 흉부 방사선 사진이나 흉부 단층촬영에서 낭종이나 공기-액체층이 보여 발견되고, 성인에서는 대개 무증상으로 지내다가 반복되는 호흡기 감염을 주스로 시행

한 흉부 단층촬영에서 진단된다^{4,10}. 본 증례의 경우도 반복적인 심한 고열을 동반한 감기 증상을 호소하였으나 원인을 찾지 못하였고 우연히 시행한 방사선학적 검사에서 기체-액체층을 보이는 경화 소견이 있어 폐 격리가 발견되었다.

증상이 없이 지내기도 하지만 호흡기 감염이 반복적으로 나타나거나 심부전, 흉막 삼출, 객혈, 혈흉 등이 동반되는 경우 치료를 해야 하고 고식적인 방법은 외과적 절제술이었다^{2,3,11}. 그러나 무증상인 환아에서 수술적인 치료는 수술 자체의 합병증이나 보호자들의 수술에 대한 인식 등을 고려할 때 결정하는데 어려움이 있으며 또한 자연히 소실되는 경우도 있어³ 비침습적인 치료로서 색전술을 시도하게 되었다^{1,5,6}. 국내 보고로서는 6일된 비면역성 수종이 있던 신생아에서 전신 부종과 호흡곤란을 보여 시행한 단순 흉부 방사선 사진과 초음파, 혈관 조영술에서 외대엽성 폐 격리가 진단되어 이로 공급되는 동맥을 막는 코일 색전술을 성공적으로 시행한 예가 있었고⁵, 국외에서는 6개월과 11개월된 외대엽성 폐 격리가 있는 소아에서 알코올과 코일을 이용한 색전술을 시행하여 성공한 사례를 보고하였다⁶. 그러나 폐 격리로 공급되는 혈관이 큰 경우에는 혈관이 완전히 막히지 않을 수 있으며 이런 경우에는 감염이 예방되지 않으므로 색전술 후 감염이 재발한 경우에는 재색전술은 시행하지 않고 수술로 제거하는 것이 추천된다¹¹. 본 증례의 경우도 15세된 소아가 잦은 감기 증상 외에는 건강하게 지냈었기 때문에 수술이 아닌 코일과 젤폼을 이용한 색전술을 시도하였으며 아직 완전히 소실되지는 않았지만 그 크기가 감소하였고, 현재 색전술 후 호흡기 감염 증상이 없이 외래에서 추적 관찰 중이다. 그러나 환아 또한 호흡기 감염이나 다른 합병증이 발생한다면 재색전술 보다는 수술적 제거를 고려해야 할 것으로 생각된다.

색전술로 인해 생길 수 있는 합병증으로 카테터 삽입을 위해 천자한 자리에 혈전이 발생할 수 있으며 이는 유로키나제를 투여하여 치료가 가능하였으나⁵ 이러한 기술적인 문제를 고려한다면 가능하면 신생아기에는 대퇴동맥보다는 제대동맥을 이용하고, 아니면 1세 이후에 시행을 하는 것이 추천된다². 또한 색전술에 이용된 glue가 이동하여 다른 혈관을 막아 허혈이 발생하는 경우는 헤파린을 투여하면 호전될 수 있다. 색전술 후 조직 괴사로 인해 통증과 발열을 경험하기도 하고 흉막액 삼출이 발생할 수도 있으나 대개는 저절로 호전되었다¹. 본 증례에서도 색전술 후에 심한 흉통과 기침, 발열을 호소하였고 C 반응성 단백이 증가되었다가 이후 증상과 검사 소견이 호전되었으며, 이것은 감염 보다는 조직 괴사에 의한 색전술 후 증후군이었을 것으로 추정된다.

색전술 후 추적 관찰에는 단순 흉부 방사선 사진이나 단층촬영을 이용할 수 있으나 폐 격리 조직은 폐의 아래쪽 깊숙이 위치하는 경우가 많아 단순 흉부 방사선 사진으로는 정확히 판정하기가 어려우므로 흉부 단층촬영이 추적 관찰에 도움이 된다. 본 증례에서도 색전술 시행 1개월, 5개월, 12개월 후에 흉부 단층촬영을 시행하였고 아직 완전히 소실되지는 않았으나 그 크기

가 감소하는 것을 확인할 수 있었다.

색전술의 가장 큰 문제는 조직 검사를 시행하지 못하여 폐 격리와 감별이 힘든 선종성 기형들을 감별할 수 없으므로 수술로 제거해야 한다는 의견이 있으나 아직 이에 대한 명확한 해답은 없어 더 많은 연구와 지속적인 추적 관찰이 필요하다⁹⁾.

폐 격리에서의 색전술은 아직 많이 시도되지 않았고, 특히 신생아나 영유아 등의 증상을 보이는 어린 나이에 발견된 환아들에게 주로 적용되어 왔으나, 본 증례는 뚜렷한 증상이 없는 상태인 거의 성인에 해당하는 15세 소아에게 색전술을 시도한 경우으로써 그 의미가 있다고 생각한다.

요 약

저자들은 자주 고열을 동반한 감기 증상을 보였던 15세 남아에서 우연히 발견된 내대엽성 폐 격리를 흉부 단층촬영과 동맥 조영술을 시행하여 흉부 대동맥 아래쪽에서 혈액 공급을 받고 좌하폐정맥으로 배액되는 내대엽성 폐 격리를 확인한 후, 코일과 젤폼을 이용해 동맥 색전술을 시행하여 그 크기가 감소하는 경우를 경험하였기에 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Curros F, Chigot V, Emond S, Sayegh N, Revillon Y, Scheinman P, et al. Role of embolization in the treatment of bronchopulmonary sequestration. *Pediatr Radiol* 2000;30:769-73.

- 2) 홍창의. 소아과학. 완전개정 7판. 서울: 대한교과서 주식회사, 2001:657-8.
- 3) Gardia-Pena P, Lucaya J, Hendry GMA, McAndrew PT, Duran C. Spontaneous involution of pulmonary sequestration in children: a report of two cases and review of the literature. *Pediatr Radiol* 1998;28:266-70.
- 4) Louie HW, Martin SM, Mulder DG. Pulmonary sequestration: 17-year experience at UCLA. *Am Surg* 1993;59:801-5.
- 5) Park ST, Yoon CH, Sung KB, Yoon HK, Goo DE, Kim KS, et al. Pulmonary sequestration in a newborn infant: treatment with arterial embolization. *J Vasc Interv Radiol* 1998;9:648-50.
- 6) Tokel K, Boyvat F, Varan B. Coil embolization of pulmonary sequestration in two infants: a safe alternative to surgery. *Am J Roentagenol* 2000;175:993-5.
- 7) Shady K, Siegel MJ, Glazer HS. CT of focal pulmonary masses in childhood. *Radiographics* 1992;12:505-14.
- 8) Siegel MJ, Herman TE. Extralobar sequestration with type II cystic adenomatoid malformation. *J Perinatol* 1996;16:315-6.
- 9) Samuel M, Burge DM. Extra-lobar intra-abdominal pulmonary sequestration. *Eur J Pediatr Surg* 1996;6:107-9.
- 10) Deparedes CG, Pierce WS, Johnson DG, Waldhausen JA. Pulmonary sequestration in infants and children: a 20-year experience and review of the literature. *J Pediatr Surg* 1970;5:136-47.
- 11) Hayakawa K, Soga T, Hamamoto K, Kawarazaki S, Mitsumori M. Massive hemoptysis from a pulmonary sequestration controlled by embolization of aberrant pulmonary arteries: case report. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1991;14:345-8.
- 12) 이해경, 한건수. 다발성 폐동정맥루에서 코일 색전술 1례. *소아과* 2001;44:1036-40.