

동맥색전술로 시술한 폐격리증 1예

순천향대학교 의과대학 내과학교실, 진단방사선과학교실*

이건화, 김동균, 나현식, 배준용, 최준호, 김양기, 김기업, 어수택, 김동훈*, 황정화*, 구동역*

A Case of Pulmonary Sequestration Treated with Arterial Embolization

Gun-Wha Lee, M.D., Dong-Kyun Kim, M.D., Hyun-Sik Na, M.D., Jun-Yong Bae, M.D., Jun-Ho Choi, M.D., Yang-ki Kim, M.D., Ki-up Kim, M.D., Soo-taek Uh, M.D., Dong-hoon Kim, M.D.*, Jung Hwa Hwang, M.D.* and Dong-Erk Goo, M.D.*

Division of Respiratory and Allergy Medicine, Department of Internal Medicine and Radiology Soonchunhyang University, School of Medicine, Seoul, Korea

Pulmonary sequestration is a very rare congenital malformation in which a mass of pulmonary tissue is detached from the normal lung and receives its blood supply from a systemic artery. It may be clinically asymptomatic or it has a wide spectrum of various clinical manifestations. The clinical therapeutic approach is to resect the sequestered lobe to prevent frequent complication such as infection. The arterial embolization of feeding artery is a new technique and a less invasive treatment than conventional surgical removal. We have experienced a 17-year-old male with pulmonary sequestration whose complaints were pain in left lower chest. He was diagnosed by computed tomography and aortography and successfully treated with embolization of feeding artery. We report a case of pulmonary sequestration treated with arterial embolization instead of surgery.

(*Tuberc Respir Dis* 2005; 58:68-72)

Key words : pulmonary sequestration, arterial embolization

서 론

폐격리증은 기관지와와의 정상적인 연결이 없으면서 주로 체동맥으로부터 혈류공급을 받는 폐실질의 한 부분으로, 분리폐가 정상폐의 늑막내에 생기는 엽내 분리증과, 독립된 늑막을 가지고 주로 횡격막 상부 또는 하부에 생기는 엽외 분리증으로 나누어 진다. 엽외형은 주로 1세 미만에서 심한 호흡기 증상이나 동반 기형으로 발견되고 엽내형은 반수에서 어른에서 발견된다. 치료는 주로 수술적 제거이나 소아 또는 영아에서는 동맥 색전술로 공급혈액을 차단함으로써 치료 효과를 나타내기도 하였다. 그리고 국내에서는 청년기 및 성인에서 폐격리증의 치료로 동맥색전술 시행에 대한 보고가 없었다. 저자들은 좌측 흉통을 주소로 내원한 17세 환자에서 진단된 폐격리증을 동맥색전술로 치료 하였기에 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 서○일, 17세, 남자

주 소 : 비외상성 기흉의 원인에 대한 검사 위해 입원하였다.

현병력 : 내원 약 2주전 축구하면서 발생한 좌측 흉통으로 본원 응급실 방문하여 좌측폐의 비외상성 기흉을 진단 받고 흉부외과 외래에서 보존적 치료 후 자연흡수 되었으며 기흉의 원인에 대한 검사 위해 입원 하였다.

과거력 : 내원 2주전 발생한 비외상성 기흉.

진찰소견 : 내원당시 혈압 130/80mmHg, 맥박 90회/분, 체온 36.6°C이었다. 환자는 비교적 건강해 보였으며 흉부 청진소견에서 호흡음과 심음은 정상이었다.

검사실 소견 : 입원당시 일반혈액검사에서 백혈구 5,500/mm³(호중구 44%, 림프구44%), 혈색소 14.8 g/dl, 적혈구용적 42.6%, 혈소판 261,000/mm³ 이었고 ESR 3 mm/hr, LDH 317 U/L 였다. 혈청생화학검사는 총단백 7.5 g/dl, 알부민 4.5 g/dl, 총빌리루빈 0.9 mg/dl, SGOT/SGPT 20/14 IU/L, BUN 11.2 mg/dl, Creatinine 0.9 mg/dl 이었다. 소변검사에서 RBC 0/

Address for correspondence : **Soo-taek Uh**
657, Hannam-Dong, Yongsan-Ku, SEOUL 140-743,
KOREA

Phone : +82-2-709-9482 Fax : +82-2-709-9554

E-mail : uhs@hosp.sch.ac.kr

Received : Oct. 11. 2004

Accepted : Nov. 29. 2004

HPF, WBC 0/HPF, protein (-), glucose(-), nitrite (-)였다. 혈청 전해질검사는 Na 142 mEq/L, K 3.8 mEq/L, Cl 110 mEq/L 이었고 동맥혈 가스 검사는 대기 호흡중 pH 7.456, PaCO₂ 39 mmHg, PaO₂ 113.3 mmHg, HCO₃ 26.8 mmol/L, SaO₂ 98.3% 이었다.

심전도 소견 : 정상 율동으로 이상소견은 보이지 않

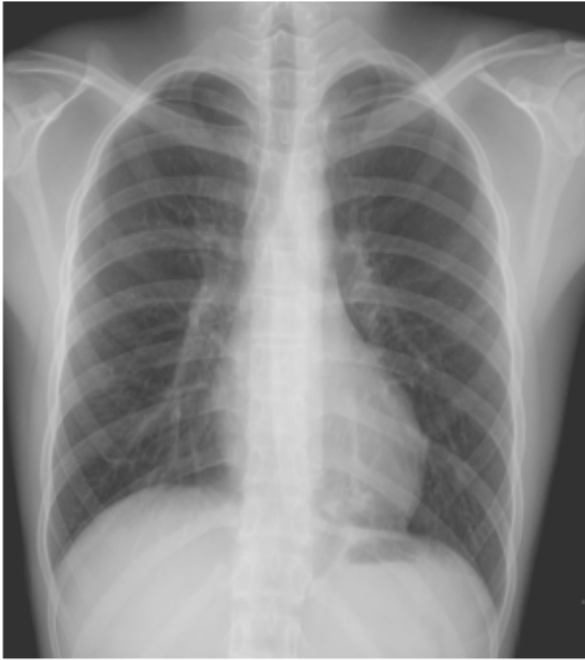


Figure 1A Initial chest radiograph shows mild hyperlucency in left lower lung and focal consolidation at basal segment of left lower lobe.

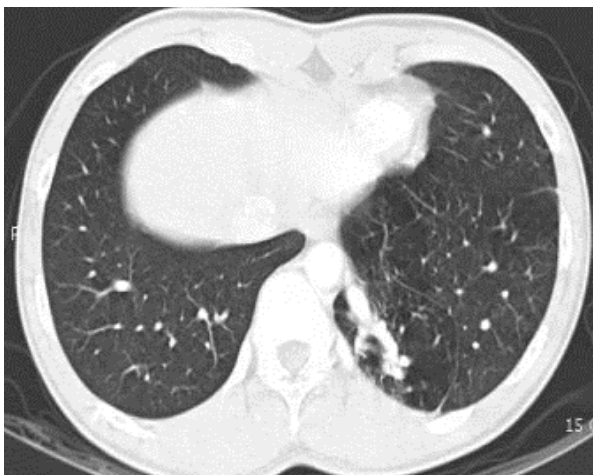


Figure 1B. Chest CT scan with lung window image show demarcated dysplastic lung parenchyma in left lower lobe with regional low parenchymal attenuation and anomalous vascular structures.

았다.

방사선 소견 : 흉부 단순 촬영에서 좌폐하엽 기저분절에 국소의 폐경화가 보였다.(Fig. 1A) 흉부 전산화단층 촬영에서 좌폐하엽 기저분절의 내측부위에 흉막으로 보이는 얇은 격막에 의해 주변 정상폐와 분리되어 보이는 저형성(hypoplastic) 폐실질이 보였다. 저형성 폐실질 내부에는 기형의 혈관구조가 보였으며 흉복부접합부(thoracoabdominal junction)의 흉부대동맥에서 기시하는 체동맥으로부터 혈류공급을 받으며 좌하엽 폐정맥으로 유입되는 양상이었다.(Fig. 1B) 대동맥 조영상에서도 좌폐하엽의 기저분절이 좌측 횡경막 부위의 미입동맥(abberant artery)으로부터 혈액 공급되는 소견이 보였으며 좌하엽 폐정맥으로 유입되는 것이 관찰되었다.(Fig. 2) 환자는 외과적 격리폐의 절제술을 받지 않아 명확히 알 수는 없었으나 정맥환류가 주로 폐정맥에 의해 이루어지고 하엽의 기저부위에 발생하며 청년기에 주로 발견되는 점으로 보아 엽내형으로 생각할 수 있었다.

치료 및 경과 : 본 환자의 내원시 시행한 흉부 첨단 방사선 사진 및 전산화 단층촬영에서 기흉시 호발하는 폐침부의 낭포는 없었고 그 외 기흉이 발생할



Figure 2 Aortogram with superselection shows aberrant systemic artery supplying to sequestered lung in basal segment of left lower lobe.

만한 다른 원인을 찾을 수는 없다. 폐격리증과 기흉의 관계를 명확히 알 수는 없었고 Maknavičius S 등⁵은 폐격리증에 의한 기흉을 보고하기도 하였다. 자연 발생적인 기흉의 발생 원인으로 매우 드물지만 폐격리증을 생각해 볼 수는 있었다. 반복적인 폐감염의 과거력은 없었으나 근치적 치료를 위하여 수술적 치료를 권하였으며 환자가 이를 거부하여 격리폐에 영양혈관의 혈류공급을 차단함으로써 격리폐를 퇴화시킬 목적으로 동맥 색전술을 시행하기로 하였다. 내원 3일째 미입동맥에 젤폼 (gelfoam)

색전술을 시행하였고 근위동맥부에 5개의 코일(coil)을 이용하여 추가적인 색전술을 시술하였다. 시술 후 시행한 대동맥 조영상 미입동맥은 완전 폐색 되었다. 동맥 색전술 6개월 후 시행한 흉부전산화단층촬영에서 흉부 대동맥에서 나오는 미입동맥은 완전 폐색 되었으며(Fig. 3) 다른 합병증 소견은 없었으나 격리폐의 용적 감소 소견은 뚜렷하지 않았다.(Fig. 4)

고 찰

폐격리증은 비교적 드문 질환으로 정상적인 기관지를 통한 교통이 없이 형성되어 있는 폐의 비기능성 배아 낭종 조직으로 한개 혹은 그 이상의 변형된 체동맥으로부터 혈액공급을 받는다. 형성기전은 식도로부터 자라나온 낭종의 잔존물로 생각되어 왔으나 일부에서는 지속적 감염과 염증에 의해 동맥의 비대와 폐조직의 낭종성 변화에 의해 후천적으로 발생한다는 가설을 제기하고 있으며 이것을 지지하는 소견으로 신생아 부검시 병변이 거의 발견되지 않는 것이다.¹

보통 엽내형과 엽외형의 두가지 형태로 구분한다. 엽내형은 정상적인 폐와 동일한 장축 늑막에 싸여 있으며 엽외형은 자체의 장축 늑막에 의해 정상 폐조직과 분리된다. 폐격리증의 빈도는 저자마다 조금 다르지만 Savic²등에 의하면 모든 선천성 폐기형의 0.15-6.4%로 보고 있다. 성별에 따른 발생빈도는 엽내형과 엽외형 모두 1.5-3:1의 비율로 남자에서 우세하게 발생한다고 보고 되었다. 호발위치는 85%가 하엽의 후기저 구역에 발생하며 약 12%에서는 하엽의 다른 구역에 발생하고 2%가 상엽, 0.25%가 중엽에서 발생한다고 보고하였다. 발생위치에 있어서는 두가지형 모두 좌측에서 호발한다고 보고하였다. 폐 격리증 환자의 연령분포는 Ferguson³에 의하면 내엽형은 청년기에, 외엽형은 신생아기에 잘 발견된다고 하였다.

임상증상은 다양하게 나타날 수 있는데 엽내형인 환자들의 주된 증상은 기침, 객담, 미열, 흉통 이며 하기도 감염의 증세가 반복되며 거듭될수록 증상이 심해진다. 15%에서는 무증상으로 우연히 흉부방사선 소견에서 의심되어 발견되는 경우도 있다.⁴ 엽외형인 경우는 주로 신생아 시기에 발견되는 경우가 많고 빈호

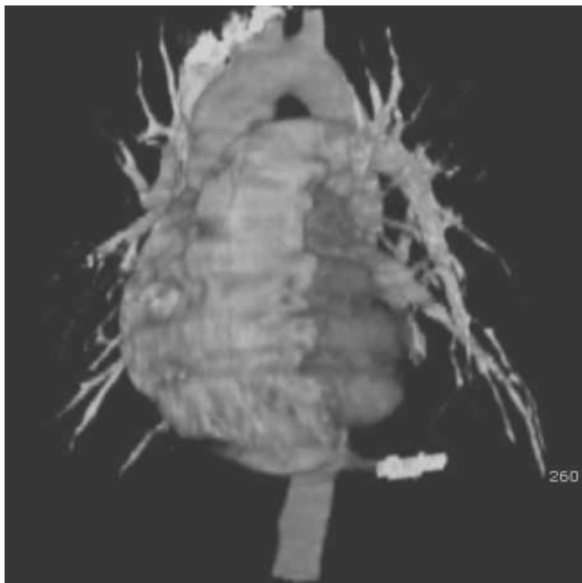


Figure 3 Chest three-dimensional reformation image CT scan 6 months after arterial embolization shows complete occlusion of feeding artery.

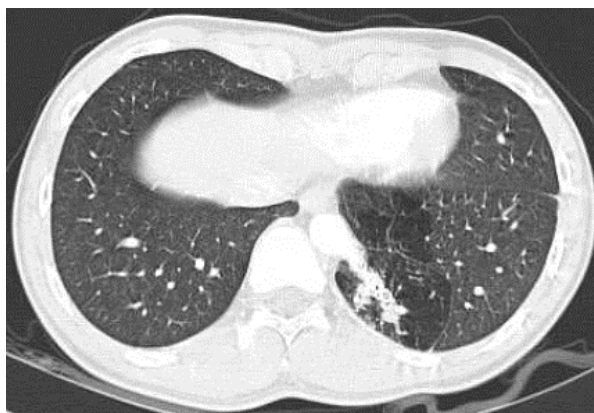


Figure 4 Chest CT scan shows the feeding vessel is well obstructed, but no change of lung volume of involved site after 6 months after embolization.

흡, 청색증, 호흡부전의 증상을 보이며 감염은 거의 없으나 드물게 식도나 위와 연결이 있는 경우에는 감염의 소견이 있을 수 있다. Maknavicius⁵은 기흉으로 내원한 환자에서 폐격리증을 진단하여 동맥 색전술과 격리폐의 절제로 치료하여 추적 관찰한 예를 보고 하였다.

진단은 단순 흉부 방사선 사진에서 엽내형인 경우는 낭포성 병변을 보이며 그 외에 수면상 음영, 폐렴성 침윤, 농흉등의 소견을 보이기도 한다. 엽외형의 경우는 폐문을 예각으로 하는 균일한 음영의 삼각형 모양이 특징이며 석회화 침착은 두 경우 모두에서 관찰할 수 있다. 흉부전산화단층 촬영에서는 균질 또는 비균질의 연조직 종괴, 내부에 공기 또는 공기 액체층을 갖는 공동성 종괴를 동반한 비균질의 폐경화, 다낭성 종괴, 또는 순수한 낭성 종괴 등으로 보일 수 있으며 조영 증강시에 혈관 분포 과다나 확장된 혈관이 보일 수 있다. 비정상적인 병소 자체 및 이를 공급하는 체동맥, 특히 하행대동맥으로부터 분지하는 미입동맥을 발견하면 진단이 가능하며 핵자기 공명 영상으로 기형혈관을 확인하기도 한다. 수술시에는 대량출혈의 위험을 방지하기 위해 혈관조영술을 시행 한다.

Ferguson³은 폐격리증의 치료로서 증상이 있는 환자에서 감염 상태가 완화 되었을 때 폐엽 절제술을 시행 하는 것이 최선책 이라고 주장하였으며 Roe⁶은 증상이 없는 경우 감염과 그에 따른 정상 폐조직의 파괴를 막기 위해 예방적인 목적으로 격리폐를 절제하는 것이 바람직하다고 주장하였다.

동맥 색전술 후 미입동맥의 폐쇄에 대한 연구에서 Perry⁷은 선천성 심혈관 질환을 가진 평균 7개월 (1개월-36개월)의 영아 54명을 대상으로 77례의 코일 동맥 색전술을 시행 하였고 평균 5개월 후 혈관조영술로 추적 결과 53례에서 완전 협착을 보였으며 19례에서 거의 완전한(subtotal) 협착이 관찰되었고 3례에서 부분협착을, 2례에서 실패를 보고 하였다. Rothman⁸은 비정상적인 동정맥 연결이 있는 심질환 환자중 평균 43개월 (3.5개월-119개월)의 영아 19명을 대상으로 코일 동맥 색전술을 시행 하였으며 심초음파로 평균 9개월 후 추적 관찰 결과 대부분 완전한 협착을 보

였다고 보고 하였다. 그러나 이들 연구에서 1명은 5개의 혈관에 코일 동맥 색전술을 하였는데 이 중 한부위에서 협착에 실패 하였고, 약 7개월 후 동맥조영술을 재시행한 4명에서 모두 완전협착이 관찰 되었다고 보고 하였다. 폐격리증에서 동맥 색전술 후 격리폐의 퇴화에 대한 보고에서 Curros⁹은 평균 14개월 된 폐격리증 환자 16명에서 젤폼과 히스토아크릴(histoacryl) 등으로 동맥색전술을 시행하였고 약 2.6년 후 흉부전산화 단층 촬영을 시행한 결과 지속적인 경과 관찰중인 2명을 제외한 10명의 환자에서 완전 퇴화를 보였으며 4명에서 부분적 퇴화를 보였다고 보고 하였다. 최근에 국내에서는 각각 11세 여아와 6세 남아의 폐격리증에서 미입동맥을 선별하여 코일 동맥 색전술로 차단하고 특별한 합병증 없이 3개월 후 시행한 흉부전산화단층촬영에서 병변의 부분적 퇴화가 관찰된 예¹⁰의 보고가 있었다. 그리고 양측성 엽내형 격리폐에서 주병변은 절제하고 무증상의 다른 측 격리폐를 절제하지 못하고 기형동맥의 결찰만을 시행한 경우에 특별한 합병증 없이 격리폐가 퇴화되어 사라지는 소견을 관찰한 예¹¹가 있었다.

본 증례에서 환자는 격리폐의 감염에 의한 증상이 없었으며 흉부방사선 사진에서도 엽중성 침윤은 보이지 않았다. 내원 2주전 좌측폐의 기흉으로 보존적 치료만 받고 자연 흡수 되었으며 현재 학생으로서 외과적 절제를 거절한 상태였기 때문에 젤폼과 코일을 이용하여 동맥 색전술을 시행 하였다. 6개월 후 시행한 흉부전산화단층촬영에서 미입동맥의 완전 폐색을 관찰할 수 있었으나 격리폐 실질의 뚜렷한 용적 감소가 관찰되지 않았다. 이전의 문헌에서 보고되었던 많은 수의 영아에서 동맥 색전술 후 관찰된 격리폐의 완전 퇴화가 본 환자에서 잘 보이지 않은 것은 흉부전산화단층촬영 및 혈관조영술 등의 검사에서도 미처 발견하지 못한 측부동맥 (collateral arteries)이 잔존하기 때문일 것으로 추측할 수 있다. 향후 예측되는 잦은 감염 등의 합병증을 줄이기 위해 격리폐 실질의 수축을 기대하고 동맥 색전술을 시행 하였으나 시술 6개월 후의 추적 관찰에서는 원하는 결과를 얻지 못했다. 본 증례의 환자는 현재 특별한 호흡기 증상 없이 외래에서 추적 관찰 중이며 향후 임상적 추적관찰이 더 필요

하다.

요 약

폐격리증 치료의 고식적인 방법에는 폐엽 절제술이 있고 덜 침습적인 방법으로는 기형혈관을 동맥색전술로 폐색시키는 방법이 있다. 최근 국내에서 폐격리증을 동맥색전술만으로 치료한 증례가 있으나 모두 소아에서 치료한 경우였다. 저자들은 17세 남자 환자에서 폐격리증을 젤폼과 코일을 이용한 동맥 색전술로 특별한 합병증 없이 치료 하였고 6개월 후 흉부전산화 단층촬영으로 추적 관찰 하였기에 문헌 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Richard EB, Robert MK, Hal BJ, Nelson textbook of pediatrics. 16th ed. Philadelphia: WB saunders; 1973. p. 200.
2. Savic B, Birtel FJ, Tholen W, Funke HD, Knoche R. Lung sequestration: report of seven cases and review of 540 published cases. *Thorax* 1979;34:96-101.
3. Ferguson TB. Congenital lesions of the lungs emphysema. In: Sabiston DC, Spencer FC, editors. *Gibbon's*

- surgery of the chest. 4th ed. Philadelphia: WB saunders; 1993. p. 686.
4. Ransom JM, Norton JB, Williams GD. pulmonary sequestration presenting as congestive heart failure. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1978;76:378-80.
5. Maknavičius S, Pošiūnas G. Pulmonary sequestration. *Medicina* 2002;38:26-9.
6. Roe JP, Mack JW, Shirley JH. Bilateral pulmonary sequestrations. *J Thoracic Cardiovasc Surg* 1980;80: 8-10.
7. Perry SB, Radtke W, Fellows KE, Keane JF, Lock JE. Coil embolization to occlude aortopulmonary collateral vessels and shunts in patients with congenital heart disease. *J Am Coll Cardiol* 1989;13:100-8.
8. Rothma A, Tong AD. Percutaneous coil embolization of superfluous vascular connections in patients with congenital heart disease. *Am Heart J* 1993;126: 206-13.
9. Curros F, Chigot V, Emond S, Sayegh N, Revillon Y, Scheinman P, et al. Role of embolisation in the treatment of bronchopulmonary sequestration. *Pediatr Radiol* 2000;30:769-73.
10. Park ES, Kim SK, Shin SH, Yoon HS, Shin SJ. Two Cases of Pulmonary Sequestration Treated with Arterial Embolization. *Pediatr Allergy Respir Dis* 2002; 12:322-7.
11. Park JE, Shin JY, Park SI, Park YS, Hong SJ. A case of bilateral intrapulmonary sequestration. *Pedi-*

atr Allergy Respir Dis 1997;7:305-10.