

# 성인에 발생한 Bochdalek 허니아

- 2 예 보고 -

유 시 원\* · 최 형 호\* · 장 정 수\*

-Abstract-

## Bochdalek Hernia in Adult (2 Case Report)

S.W. Yoo, M.D.\*, H.H. Choi, M.D.\*, J.S. Chang, M.D.\*

Congenital diaphragmatic hernia through of Bochdalek foramen, posterolateral diaphragmatic hernia, is the result of a congenital malformation of the posterolateral region of the diaphragm. Bochdalek hernia is not a rare anomaly and is the most common type of congenital diaphragmatic hernia. The defect is more frequently on left (about 5 times). The purpose of this paper to present the Author's recent experience with two cases of the congenital posterolateral diaphragmatic hernia adult women which was trated surgically in the Dept, Thoracic Surgery, Chosun University Hospital. The postoperative course were unevenful and both of them were discharged without any other complications.

Our study and surgical experience was discussed and the literature reviewed.

### 서 론

선천성 횡경막 탈장증은 비교적 발생빈도가 적은 질환이다. Gross<sup>10)</sup>에 의하면 Bochdalek hernia가 선천성 횡경막 탈장증의 90%정도로 많은 빈도를 나타낸다고 한다. 그러나 호발 연령이 2세 이하의 신생아가 대부분이며 성인에서는 드문 편이다.

본 조선대학교 의과대학 흉부외과에서는 20대 중반의 성인 여자에서 발생한 Bochdalek hernia 2예를 치험하였기에 문헌고찰과 아울러 보고하는 바이다.

#### 증례 1.

본 환자는 24세 여자로서 임신 23주째 급격한 호흡곤

란, 심한 상복부 복통 및 구토를 주소로 단순흉부X-선 상 횡경막 탈장증의 의심하에 입원하여 상부 위장관 투시로 확진된 환자로서 과거력상 특별한 질병을 앓은 적은 없으나 입원 약 5년전 부터 좌측 흉통으로 개인의원에서 늑막염의 진단하에 치료를 몇차례 받은 과거력은 있었다.

이학적 소견 : 입원당시 소견은 심한 호흡곤란으로 늑간과 상복부는 함몰 되었고 좌측 호흡음은 전혀 청취할 수 없었으며 타진상 탁음을 들을 수 있었다. 심음도 우측으로 전위되어 우측 흉골연에서 잘 청취되었고 복부는 팽만되고 장운동음은 심히 감소되었고 태아 심음이 청취되었다. 복부에서는 Umbilicus 상방 3횡지 크기의 자궁이 촉진되었고 피부의 긴장도는 감소되어 있었다. 외견상 다른 기형은 발견되지 않았다. 체중은 42.5kg으로 약간 야윈 상태며 맥박 104회/분, 호흡수 35회/분, 체온 37.1℃, 혈압 130/90mmHg 이었고, 혈액검사상 Hb 13.2gm/dl Hct 39% WBC 40,000mm<sup>3</sup> 이었다. 소변검사상 특

\* 조선대학교 의과대학 흉부외과학교실

\* Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, College of Medicine, Chosun University.

이한 소견은 없었다.

단순흉부 X-선상 심장을 포함한 중격동과 기관지는 우측으로 전위되었고, 좌측 흉부에 전체적으로 증가된 음영을 보이며 좌측 폐야에서는 비교적 가스도 충전된 장관내의 액체준위를 나타냈고 좌상 폐야에서 대장 용기 양상을 볼 수 있었다(사진 1).



사진 1. 단순흉부 X-선상 좌측흉부에 전체적으로 증가된 음영과 가스로 충전된 장관내 액체준위를 보인다.



사진 2. 측면사진상 액체준위로 보인 가스가 충전된 장관이 후방에 보이고 있다.

측면 사진상 액체 준위로 보인 가스가 충전된 장관이 후방에 보이고 있다(사진 2). 따라서 횡경막 탈출증을 의심하여 위장에 Levin 튜브를 삽관후 Hypaque를 사용 위장관 조형술을 실시한 결과 위장이 흉강내로 Herniation 되었음을 확인하였다.

수술 및 수술소견 : 기관 삽관후 전신 마취하에 좌측 Thoracoabdominal 절개를 시행하여 좌측 늑막강내로 위장, 대장, 소장 및 장간막이 탈출되어 있었고 횡경막 결손은 좌측 횡경막 후방에 4×5 cm의 크기로 발견되었으며 hernia sac은 없었다. 좌측폐는 중등도의 발육부전증이 있었으나 다른 기형은 발견되지 않았다.

수술은 위장, 장관 및 장간막을 복강내로 정복하고 횡경막 결손부위는 1-0 black silk로 완전 봉합하고 좌측 늑막강내 chest tube(32Fr)를 유치하여 수술후 30일에 완쾌된 상태로 퇴원하였다.

## 증례 2.

본 환자는 25세 여자로서 정상분만 4개월후 점진적인 상복부 복통 및 구토를 주소로 상부 위장관 투사로 횡경막 탈출증 진단하에 본원 흉부외과에서 수술한 환자로서 과거력 및 가족력은 특이한 소견은 없었다.

이학적 소견 : 입원당시 중등도의 탈수 상태였고 좌측 폐의 호흡음은 감소되었으며 좌측 흉부에서 오히려 장 운동음이 청취되었고 타진상 탁음이 청취되었다. 경한 호흡곤란으로 늑간과 상복부는 약간씩 함몰되었고 상복부에 심한 압통이 있었고 장 운동음은 감소되어 있었다. 체중은 47.5 kg 이고 맥박 90회/분, 호흡수 25회/분, 체온 36.5℃, 혈압 120/90mmHg 이고 혈액검사상 Hb. 14.2 gm/dl, Hct 42%, WBC 7,900/mm<sup>3</sup>이었고 소변검사는 특이한 이상은 없었다. 흉부 단순 X-선상 중격동이 약간 우측으로 전위되었고 바리움으로 충전된 장관이 대장 양상의 용기를 좌하후 흉부에 보이며 가스로 충전된 다른 장관의 양상이 심장 실루엣을 통해 보이고 있으며(사진 3), 측면사진상 전방 횡경막은 보존 되었고 위, 장관이 횡경막 상방인 흉부 후방에 보이고 있다(사진 4).

수술 및 수술소견 : 기관 삽관후 전신 마취하 좌측 제 7 늑간을 통한 개흉술을 시행하여 좌측 흉강내에 Hernia sac이 없는 위장, 소장, 결장 및 비장이 Herniation 되었으며 횡경막 결손 부위는 횡경막 후방에 4×4 cm의 크기로 발견되었으며 다른 기형은 발견되지 않았다. 위, 장관 및 비장을 복강내로 정복하고 횡경막 결손부는 1-0 black silk로 봉합하였다. 좌측 흉강내에 chest tube



사진 3. 상부위장관 투시후 적은 흉부단순 X-선상 바로 움으로 충만된 대장용기 양상이 흉부에 보인다.



사진 4. 측면 사진상 전방 횡경막은 보존되었고 위, 장관이 횡경막 상방인 흉부후방에 보이고 있다

(32 Fr)를 유치하였고 환자는 양호한 경과를 취한 후 수술 후 제 11일만에 완쾌되어 퇴원하였다.

### 고 찰

Bochdalek hernia는 1848년 Bochdalek 이 횡경막 후외

측에 개구부가 <sup>4,9,10</sup> 있는 것을 처음으로 기술한데서 유래되었으며 발생빈도는 4,000명당 1명꼴로 발생된다고 하였으며 선천성 질환으로 사망하는 영, 유아의 8%를 점유한다고 한다<sup>11</sup>.

선천성 횡경막 탈장증은 Bower<sup>5)</sup>에 의하면 1,200명 중 1예, Potter<sup>16)</sup>에 의하면 2,100명중 1예의 비율로 볼 수 있다고 하였으며 Bradley에 의하면 Mayo clinic의 임원 환자중 18,000:1의 비율로 볼 수가 있었다고 한다. Bochdalek Hernia는 Benson<sup>3)</sup>에 의하면 선천성 횡경막 탈장증 77례중 50례에서 65% 차지 하였고 Gross<sup>10)</sup>에 의하면 총 91례중 90%를 차지한다 하였고 또 조<sup>12)</sup>에 의하면 20례중 11례의 보고가 있었다. 좌우의 비에 있어서 Gross<sup>10)</sup>는 82례중 좌측이 69례, 우측이 13례로서 약 5:1, Cerilli<sup>6)</sup>도 좌측이 29례, 우측이 6례로서 5:1, Borrie<sup>12)</sup>도 5:1, Battes<sup>2)</sup> 3.4:1, Ricker<sup>13)</sup> 4.8:1로서 좌측이 월등히 호발됨을 나타냈고 Carl 및 Linville<sup>7)</sup>의 165명의 환자를 분석한 바로도 약 5:1의 비율을 보였으며, 최근에 보고된 국내 문헌상에서는 좌우의 비가 약 10:1의 비율을 보였다<sup>22-23)</sup>. 이와같이 좌측에 호발되는 이유는 태생학적으로 좌측 횡경막의 후외측의 융합이 가장 늦다는 것과 우측의 간엽에 의한다고 설명되고 있다. 저자들의 예에서는 모두 좌측에 발생한 Bochdalek hernia였다. 연령은 대부분 신생아에서 발견되며 Cerilli<sup>6)</sup>는 35례중 24례가 24시간 신생아였다. 그러나 Sugg<sup>20)</sup>는 72세에서 치험한 예도 있다하며 국내에서는 22, 27, 50세의 치험 보고가 있고 저자의 치험례는 24세, 25세이었다.

선천성 횡경막 탈장증은 초기에 심한 증세를 나타내므로 신생아에서 발견되며 많은 신생아는 진단이 내리지기전 생후 첫 3개월내 사망하는 수가 많기 때문이다. 남녀의 비에 있어서는 남자가 비교적 많다고 한다 Carl<sup>7)</sup>에 의하면 동물이었다고 하며 Cerilli<sup>6)</sup>에 의하면 35례중 남자가 21례, 여자 14례 였으며 Swan<sup>21)</sup>은 3:2 Donvan<sup>8)</sup>은 5:4이고 Moore<sup>15)</sup>는 7:9로서 여자가 많았으며 최근까지의 국내에 보고된 문헌상에서는 19:5로 남자가 많았으나<sup>22-23)</sup>, 저자의 치험례는 2례 모두 여자였다.

태생초기에 복강과 흉강사이에 횡경막이 없어 하나의腔을 이루고 있다. 8~10주 사이에 Septum transversum 종격동 및 흉벽의 근육층의 세 구조물로 부터 형성된다. 태생기 8주에 Septum transversum에서 횡경막의 중앙부가 생겨나서 간장과 심장 사이로 자라서 들어가고 후반부에서 foregut의 dorsal mesentery 방향으로 성장해

들어가는 결곡은 이 두부위가 융합하게 된다. 그 결과 전후방부도 형성되나 양측 후방부는 장래의 복강과 흉강이 서로 소통된 채로 남아 있게 되는데 이 3각형의 개방공을 **Pleuroperitoneal Canal or Bochdalek** 씨 孔이라 부른다. 이는 정상적으로 복막과 흉막의 얇은막으로 형성되어 있다가 후에 경부근절(Cernical myotome)에서 유래된 근조직이 섬유막 사이로 자라나와서 완전한 횡경막을 만든다. **Pleuroperitoneal Canal**이 폐쇄된 후에 폐가 성장되면서 늑막강이 커진다. 횡경막이 형성 되면서 **Midgut**가 발생되어 태생기 10주에 복강내로 이동한다. 이때 복강내로 장이동이 불안전하게 되거나 **pleuroperitoneal membranc**의 폐쇄가 지연되면 장내의 내용물이 음압상태인 흉강내로 합입되면서 **Bochdalek** 씨 孔을 통한 탈장이 생긴다. 이때에 장의 **Rotation**이나 **fixation**이 될 기회를 잃으면 불안전한 **Rotation** 및 **fixation**이 생긴다.

**Bochdalek hernia**는 85~90%에서 **Sac**이 없고 약 10~15%에서 **Sac**이 있다. **Gross**<sup>10)</sup>는 후측방 탈장의 90%에서 **Sac**이 없다 하였고 **Moore**<sup>15)</sup>는 16례중 3례만 **Sac**이 있었다고 하였다. 저자의 경험례에서는 2례 모두 **Sac**은 없었다.

탈장이 우측에 있을 때는 결손부가 적으면 큰 간우엽에 의해 차폐되어 발견할 수가 없으나 클때는 소장 및 대장과 아울러 간우엽까지도 탈출되는 수가 있으며 좌측 탈장이 있을지는 소장, 위장, 대장 및 비장이 쉽게 탈출되고 간혹 신장의 탈출도 볼 수가 있다<sup>6)</sup>. 드물게는 **ovarian cyst**<sup>17)</sup>나 **pancreas**<sup>20)</sup>가 탈출되는 보고도 있다.

본 질환의 중요한 증상은 탈장의 좌우위치 및 결손부의 대소 그리고 탈장의 내용장기에 따라 복잡하고 다양하나 주로 생후 24시간 이전에 71%, 24시간 이후에 29%정도 나타나며 경우에 따라서는 드물게 성인에서도 나타난다<sup>10)</sup>.

증상은 주로 호흡기 및 위장관 증상이 나타나는데 **Gross**<sup>10)</sup>에 의하면 청색증, 호흡곤란 및 구토가 신생아 및 유아에 있을때 본 질환을 의심한다 하였으며 **Baffes**<sup>3)</sup>에 의하면 47례중 순환기 증상이 40례에서 위장관 폐쇄 증상이 7례였다고 보고하였으며 **Cerilli**<sup>6)</sup>에 의하면 **ly-anosis** 77%, 호흡장애 및 호흡음 저하가 68%로 주증상을 나타낸다고 하였다. 신생기를 지나고 증세가 나타나는 경우에는 발육장애, 간헐적 구토, 점진적인 호흡장애를 나타낸다<sup>14)</sup>. **Kirkland**<sup>13)</sup>에 의한 34례의 문헌고찰에서는 초기 증상이 위, 장관의 폐쇄에 기인하기 때문에

다른 질환과 혼돈 오진하기 쉽다고 했고 34례중 가장 많은 증상은 복통 17례, 다음은 구토 9례, 흉부통 8례, 호흡곤란 7례의 순서였으며 증상이 없는 경우도 7례나 되었다. **Powers**<sup>17)</sup>가 치험한 예에서는 심한 좌측 흉통, 심한 상복통, 오심 및 반복구토, 호흡곤란의 증상이 있었으며 이런 **Episode**는 환자가 앉아 있을때는 증상이 조금 완화되고 누우면 다시 악화 되었다고 보고 하였는데 그이유는 복강과 흉강 사이에 **free communication**이 있어 앉아 있을때는 탈출된 장기들이 복강내로 재정복되기 때문이라 하였다.

저자의 치험례에서는 임신과 관계되어 복압의 증가로 발생된 탈장의 악화로 심한 호흡곤란, 상복통, 구토의 증세였으며 환자의 체위와 관계없이 점점 더 심해졌다. 단 순흉부 X-선 촬영이 거의 절대적인 진단적 가치가 있으며 **Cerilli**<sup>6)</sup>는 34례중 29례에서 확진이 가능하였다고 보고하였으며 흉강내에서 장관의 불규칙한 가스상을 볼 수 있고 종격동의 반대측 전위, 병변측 폐의 위축 및 횡경막 거상을 볼 수 있고 측면 촬영으로 부위를 더욱 확실하게 알 수 있다. **Carl**<sup>17)</sup>에 의하면 단순 흉부X-선상 투명도로 장관, 폐낭종 또는 기흉과의 감별이 곤란할 경우에 조영제에 의한 상부 위장관 투시로 식도의 측면 전위와 식도위 융합부의 위치변화를 볼 수 있다고 하였다. 일반적으로 단순 사진이나 기타의 방법으로 진단이 가능하게 되면 조영제에 의한 투시는 불필요하며 **Ricker**<sup>18)</sup>는 오히려 유해하다고 하였다. **Gross**<sup>10)</sup>도 조영제 사용을 금했으며 이는 신생아 및 유아에서 **Barium**의 구토 및 흡인에 의한 합병증의 위험성 때문이고, 만일 사용시 주의를 요해야 한다 하였다. 본 질환은 대개 신생아에서 많이 발생하고 심한 호흡곤란과 청색증, 장폐쇄증을 나타냄으로서 가능한한 응급수술을 요한다. **Gross**<sup>10)</sup>에 의하면 신생아의 선천성 횡경막 탈장증은 확진되는 즉시 조기 수술을 요하며 특히 출생 첫 48시간내의 수술이 최선의 방법이라고 강조하였다. 이는 환자의 상태가 기다려서 좋아지는 경우가 거의 없고 장내의 **Gas distention**이 적어 수술이 용이하기 때문에 수술을 지연시키는 것은 사망률을 높일 뿐이라 하였다.

수술적 교정을 위해 개복, 개흉, 개흉복 등 3가지 절개법이 있으나 **Carl**<sup>17)</sup>에 의하면 개복은 탈장의 교정이 용이하고 위, 장관의 기형을 쉽게 발견 교정하기 쉽다 하였으나 **Harrington**<sup>11)</sup>은 탈장이 우측 횡경막에 있을시에 의해서 횡경막 노출이 어렵고 수술 시야가 좋지 않다고 하였다. 개흉은 **Gross**<sup>10)</sup>에 의하면 수술시야는 좋으나 위장관 기형을 알 수 없고 정복도 어렵다고 하였으

며 개흉복은 심장 및 위장관의 기형을 동시에 관찰할 수 있으나 수술 조작이 너무 광범위하여 수술후 회복시 많은 위험을 준다. 따라서 절개법은 탈장의 부위, 환자의 상태에 따라 결정할 문제라 생각한다.

선천성 기형 질환을 동반하지 않은 경우는 예후가 좋으며 특히 심장기형 및 폐발육 부전을 동반하는 경우는 생존률이 낮다. 초기에는 거의 100% 가까운 사망률을 보였으며 최근 소아외과의 발달로 사망률은 낮아지고 있다.

Carl<sup>7)</sup>은 30~40%, Cerilli<sup>6)</sup>는 28%, Gross<sup>10)</sup>는 11%의 사망률을 보고하였고 Cerilli<sup>6)</sup>에 의한 연령과 사망률의 분포에 의하면 연령의 증가에 따른 사망률의 감소를 보이고 있다.

## 결 론

최근 조선대학교 의과대학 흉부외과학교실에서 성인에 발생한 Bochdalek Hernia 2례를 치험하였는데 이는 성인 여자에서 임신과 관계된 복압의 상승에 의한 증상의 출현으로 발견된 것이었으며 2례 모두 Hernia Sac은 없었고 1례는 Thoracoabdominal, 1례는 Transthoracic approach로 치료하였기에 문헌고찰과 아울러 보고하는 바이다.

## REFERENCES

1. Areecon, W., and Reid, L.: *Hypoplasia of the lung with congenital diaphragmatic hernia*, *Br. Med. J.* 122:612, 1i63.
2. Baffes, Thomas, G.: *Diaphragmatic Hernia in Pediatric Surgery*, vol. 1, Chicago, 1962, *The year book publishers, Inc.*, p. 251.
3. Benson, C.D., W.T. Mustard, M.W. Ravitch, W.II. Snyder and K.J. Welch.: *Pediatric surgery*, Vol. 1. pp, 253;259, Chicago, year book medical publisher, 1962.
4. Boles, E.T., Schiller, M., and Weinberger, M.: *Improved management of neonates with congenital diaphragmatic hernia*, *Arch. Surg.* 103:344, 1971.
5. Bowers, B.M., Jr. Mc. Elin, T.W. and Doesey, J.M.: *Diaphragmatic hernia in newborn*, *Obst, Gyn.* 6:262, 1955.
6. Cerilli, G.J.: *Foramen of Bochdalek Hernia*, *Ann. Surg.* 159:385-389, 1964.
7. Carl, W.S. and John, L.L.: *Congenital diaphragmatic*

- hernia through foramen of Bochdalek*, *Arch. Surg Vol. 91:823-828, Nov., 1965.*
8. Donovan, H.: *Congenital diaphragmatic hernia*, *Ann. Surg.* 122:569, 1945.
9. Gray, S.W., and Skandulakes, J.E.: *The diaphragm in Gray, S.W., and Elias, J.: Embryology for Surgeons (Philadelphia, W.B. Saunders Company, 1972, pp. 359-374.*
10. Gross, R.E.: *The surgery of infancy and hchildhood*, W.B. Saunder Co. Philadelphia, pp. 428-440, 1953.
11. Harrington, S.W.: *Various type of diaphragmatic hernia treated surgically (report 430 cases)*, *surg. and Obst.* 86:735, 1948.
12. John Borrie.: *Diaphragmatic hernia*, *Rodney Maingot, abdominal operation*, 5th ed. vol. 2, ~1305-1336, 1969.
13. Kirkland, A.: *Congenital posterolateral diaphragmatic hernia in the adult*, *Brit. J. Surg.*, 47:16, 1959.
14. Marvin Pernerantz.: *The diaphragm. In the Gibbon's Surgery of the chest. 3rd Ed. Philadelphia, W.B. Saunders company, p. 790, 1976.*
15. Moore, T.G., Eatterby, J.S., Roggentcamp, M.W. and Campbell, J.A.: *Congenital posterolateral diaphragmatic hernia in the newborn*, *S.G.O.*, 104: 675, 1957.
16. Potter, E.L.: *Diaphragmatic hernia in the newborn infarnt*, *Am. J. Obst. Gyne.*, 43:502, 1942.
17. Powers, R.C., et al. : *Strangulated Foramen of Bochdalek hernia in the adult*, *Am. J. Surg.*, 111; 749-51, 1966.
18. Riker, W.L. : *Congenital Diaphragmatic Hernia*, *Arch, Surg.* 69:291-308, 1954.
19. Sotton, J.P., Carlisle, R.B., Stephenson, S.E. : *Taumatic diaphragmatic hernia*, *Ann. Thorac. Surg.* 10:180, 1970.
20. Sugg, W.L. and Roper, C.L. : *Incarcerated Bochdalek hernia in the adult*, *Ann. Surg.*, 160:847-851, Nov., 1964.
21. Swan, H. : *Congenital diaphragmatic hernia through the pleuroperitoneal canal (Foramen of Bochdalek)*, *Rocky Mountain Med. J.* 45:480-488, 1948.
22. 김경애, 이경희, 김선원, 김규환, 김옥수, 박헌희, 박용길 : 선천성 우측 횡경막 탈장증, 대한외과학회지, 14-365, 1972
23. 김병노 : Bochdalek 씨 공을 통한 선천성 횡경막 탈

- 장증 1예, 대한흉부의과학회지 7:127, 1974
24. 김수길, 이기주, 박정호 : Bochdalek 탈장, 대한외과학회지, 14-133, 1972
  25. 김해봉, 조성경, 김용유, 심영보 : 성인에 발생한 Bochdalek 허니아 대한외과학회지, 12:30, 1970
  26. 배인근, 박수하, 안재두, 유세영, 이상주, 안치열, 이영인 : 우측 Bochdalek hernia. 대한흉부의과학회지, Vol. 6 No. 1 109-112, 1973
  27. 윤병택, 이정선, 강대수, 손기섭 : 선천성 횡경막탈장증, 대한외과학회지, 14-173, 1972
  28. 조규석, 조범구, 홍승록 : 횡경막허니아(20예보고) 대한흉부의과학회지, Vol. 11 No 4, 1978
  29. 진재권, 박주철, 유세영 : 선천성 Bochdalek hernia (4례 보고) 대한흉부의과학회지, Vol, 15, No, 4, 432-439, 1982
  30. 최승무, 김진용, 허만, 신위영, 백선행 : 좌측횡경막내 장탈출증의 2예, 대한외과학회지, 8:7, 1966
  31. 황규성, 현응설 : 육군훈련병의 Bochdalek 공을 통한 감돈된 횡경막탈장의 1예, 대한외과학회지, 10:6, 1968
-