

식도중복증 1례 보고

허 용* · 이 강 식* · 강 경 훈* · 유 회 성* · 서 정 일** · 마 성 대***

- Abstract -

Surgical Treatment of Esophageal Duplication

Y. Hur, M.D.*, K.S. Lee, M.D.*, K.H. Kang, M.D.*
H.S. Yu, M.D.*, J.I. Suh, M.D.** , S.D. Ma, M.D.***

Esophageal duplication constitute about 10% of all the mediastinal tumor and relatively rare condition.

We have experienced one case of esophageal duplication which was found 2 years previously by radiologic study of chest, as mediastinal mass, in 37 years old male.

He had neither clinical manifestations nor physical findings leading to the surgical discovery of the duplication. During the last 2 years, the size & location of the mass were stationary in character.

Operative therapy of complete excision performed without surgical complication.

On microscopic study, the lining cell of inner wall of cyst. Noted pseudostratified ciliated columnar epithelium with smooth muscle.

를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

I. 서 론

식도중복증은 종격동 전체 중앙의 약 2.2% 정도를 차지하고 있으며 발생학적으로는 태생 4주에 형태를 유지한 관을 형성한 식도가 태생 6주에 점차 유합되어 식도내강을 만들게 되는데 이 과정에서 Vacuoles이 남게 되어 초래되는 질환이다³⁾.

1711년 Blasius^{8,19)}에 의하여 처음 기술되었으며 1931년 Sauerbruch^{3,19)}가 최초절제술을 시행한 바 있다.

본 흉부외과에서는 식도하부에 발생한 중복증 1례

- * 국립의료원 흉부외과
 - Department of Thoracic & Cardiovascular Surgery, National Medical Center
 - ** 국립의료원 병리과
 - ** Department of Pathology, National Medical Center
 - *** 국립의료원 흉곽내과
 - *** Department of Chest Medicine, National Medical Center
- 1988년 7월 26일 접수

II. 증 례

환자: 37세, 남. 민 ○○

병력:

일상생활에 불편없이 지내던 중 내원 2년전 정기신체검사시 단순흉부촬영상 비정상 음영이 우측하부 종격동의 내측에서 발견되었다. 그후 새로 나타나는 증상은 없었으나, 내원 1년전부터 간혹 우측 흉부 불쾌감이 동반되기도 하였다.

과거력상 특기사항은 없고, 흡연은 하루 1갑으로 15년 피웠고 음주는 하지 않았다. 내원 2개월전 부터 운동시 경도의 호흡곤란이 있어서 본원 흉곽내과에 입원하였다.

입원시 이학적 소견상 혈압 120/90 mmHg, 맥박 86회/분, 체온 37°C였으며 전신 및 영양상태는 양호한 편이나 체중이 최근 2개월 사이에 2 kg 정도 감소하였다(50 percentile ↑).

검사실 소견상, 일반노검사, 간기능 일반혈액 및 전해질 등의 생화학적 검사는 정상이었다.

단순흉부촬영상 우측 폐문부에 주변경계가 명확한 반구형의(6.5 cm×4 cm)의 음영이 있었으며 음영내 석회화 등은 없었다. 2년전 촬영한 단순흉부사진과 비교한 결과 그 크기의 모양 및 위치상 차이점은 없었다 (Fig. 1)

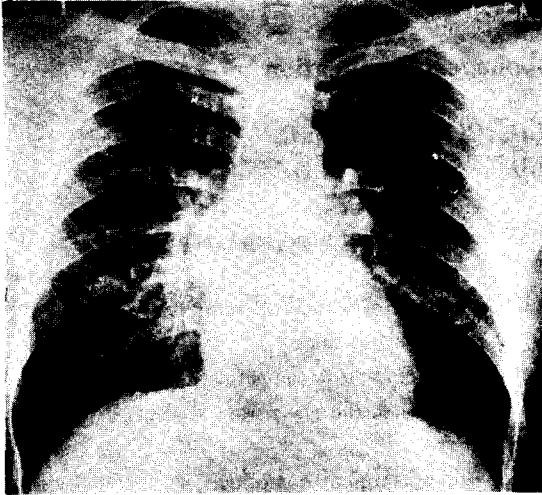


Fig. 1. Pre-Op. Chest P-A.
Well defined hemispherical mass density on Rt. hilar area.

식도조영술상 식도내강의 폐쇄, 협착 및 신생물의 병변은 없으나 제 4흉추체 높이에서 식도가 외부의 압박을 받아 우측에서 좌측으로 편위된 소견이 있었다 (Fig. 2).

기관지내시경상 우상엽 입구는 잘 보였으며 우측 제 2기관분지에서부터 외부에서 눌러져 있었고, 우중엽 및 우하엽 입구까지도 막은 소견이었으며 명확한 이상 종괴는 없었다.

흉부전산화단층촬영상 6.5×6.3×5.7 cm 크기의 종괴음영이 우측 주기관지 말단부위부터 압박하고 있으며 주변과의 경계는 비교적 명확하였으며 종괴내벽에 약간의 석회화변화가 있었고 척추 등에 침범 또는 병변은 없었다(Fig. 3).

폐기능검사상 V.C.: 92%, FEV₁: 81%, M.B.C.: 80%로 정상범주였고, 심전도검사상 정상이었다.

수술은 종격동 후하부에 발생한 중앙 혹은 낭종을 생각하고, 우측 개흉술을 시행하였다. 우측 제 5늑간공을 통하여 흉강내 도달하였고, 흉막유착 및 늑막액은

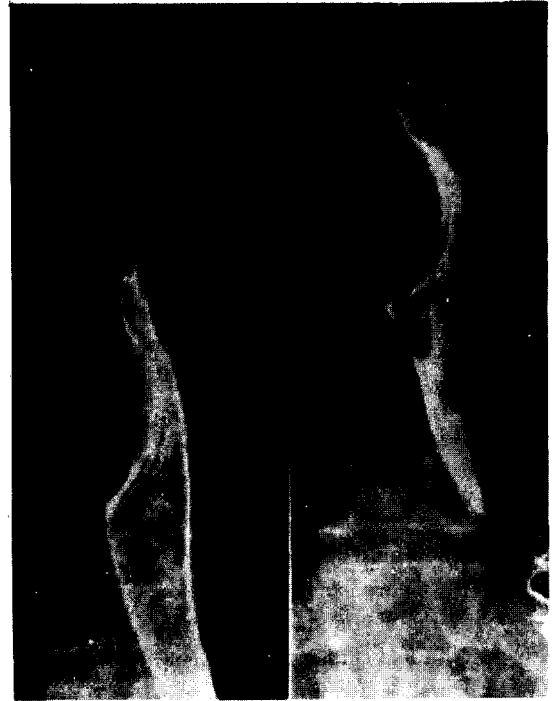


Fig. 2. Esophagogram:
Large smooth indentation of retrocardiac portion of esophagus by huge soft tissue mass density.

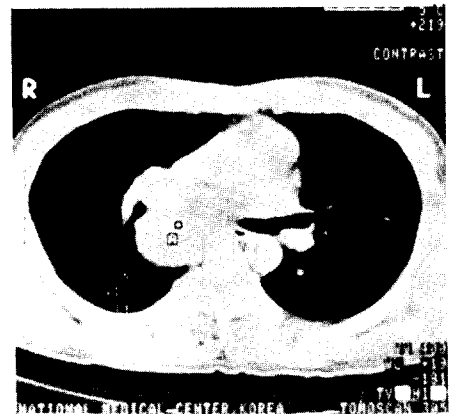


Fig. 3. Chest C.T.:
Demarcated round hyperdensity(5.7X6.5X6.3 cm) in diameter, with small calcification in right sided subcarinal region.

없었으나, 폐침부에 경한 막성유착이 있었다. 후종격동부위의 늑막을 폐실질 조직과 분리시킨다음, 식도벽에 심하게 유착되어 있는, 달걀모양(6×6 cm)의 매끄러운 외막을 가진 종괴를 발견할 수 있었다. 이 종괴의 경계부위는, 위로 기정맥, 외측으로 식도, 내측

으로 우측 주기관지의 말단부, 아래로는 하폐정맥이 각각 위치하였고, 특히 외측의 식도외벽과 교통은 되어 있지 않았으나, 심한 섬유성유착이 관찰되었다 (Fig. 4).

적출표본내에는 약 150 ml의 엷은 초록색조를 띤 점액성 내용물이 있었으며 냄새는 없었다. 표본내면은 주름을 가진 점막성조직이 있었다(Fig. 5).

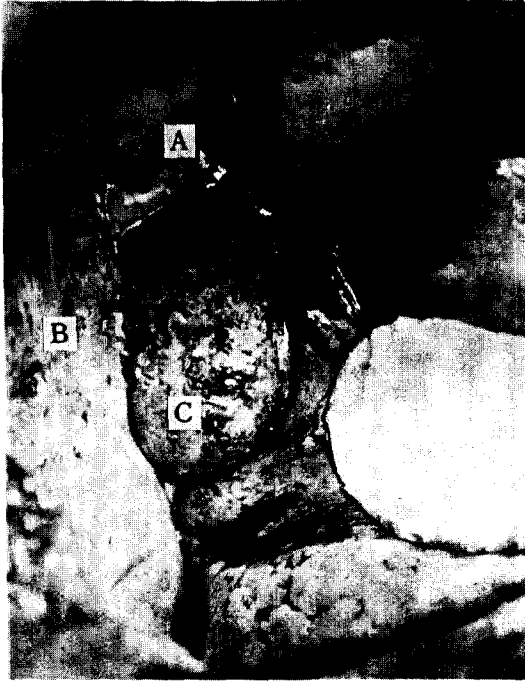


Fig. 4. Operative findings:
A.: Azygos vein.
B.: Spine.
C.: Esophageal duplication.

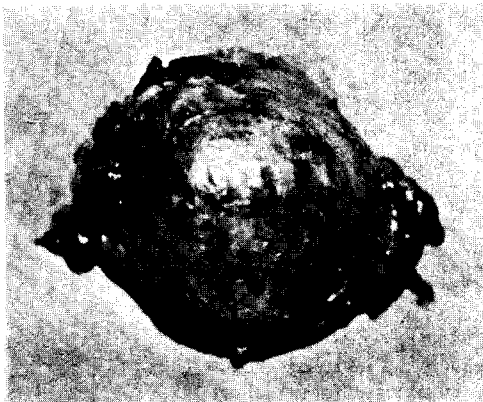


Fig. 5. Gross findings:
Smooth surfaced cystic wall which contained mucous contents(150 ml).

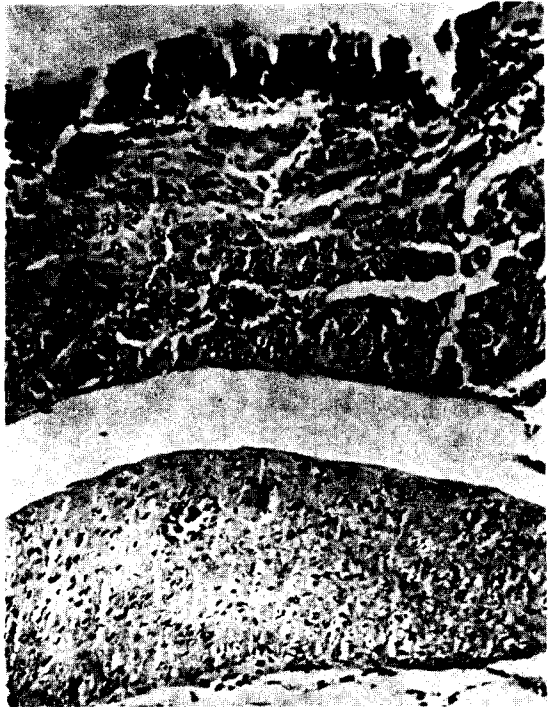


Fig. 6. Microscopic findings:
Lined by pseudostratified ciliated columnar epithelium. The wall reveals distinct inner & outer smooth muscularis propria.(H. & E. Stain x100)

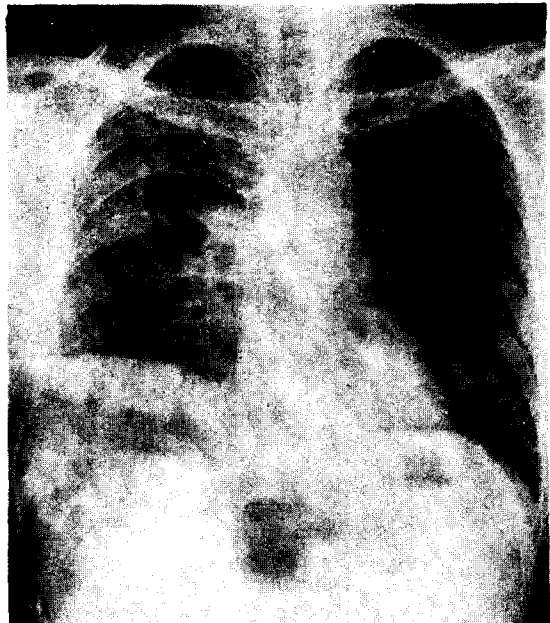


Fig. 7. Post Operative chest P-A:

표본의 병리소견상, 낭종벽은 Pseudostratified ciliated columnar cell과 부분적인 Squamous metaplasia 상태의 세포가 혼합되어 있었고, 잘 발달된 두 층의 Smooth muscle이 존재하였으나, 연골조직은 관찰되지 않았다(Fig. 6).

술후 경과는 양호하였으며 술후 제 15일째 퇴원하였다(Fig. 7).

III. 고 안

종격동내 낭종성 병변은 약 18%정도이고 이중 40%는 pericardial cyst이고 나머지는 primitive foregut에서 기인되는 것이다²¹⁾.

식도중복증은 빈도상 전체 종격동중양의 10% 미만을 차지하고 이중 60%는 식도 하부에 잘 생기며 우측에 호발한다²²⁾.

본 예도 우측 하부식도에 발생되어 있었다.

Bremer⁷⁾는 중복증 발생이론에 대하여 다음과 같이 설명하였다. 즉, 태생 6주가 되면 소화기 장관내강이 빠른 상피세포의 증식으로 막히게 되는데 이때 Vacuoles이 세포내에서 자라게 되며, 점차 합쳐서 장의 긴 축을 따라서 길게 배열되나, 이 과정에서 Vacuoles이 독립적으로 나타나면, 다른 내강을 형성하여 초래된다(그림 참조).

임상증상은 크기, 위치에 따라서 소화기 호흡기계를 압박하여 연하곤란 빈번한 폐염, 흉부불쾌감, 호흡곤란 등을 유발할 수 있고, 심장뒤에 병변이 있는 경우 부정맥을 야기하는 수도 있다¹⁹⁾. 낭종내의 점막이 케양, 천공 및 출혈을 일으켜 각혈 또는 흉부내 출혈이 나타나는 경우도 있다. 심한 경우 대동맥을 침범하여 치명적일 수도 있다²²⁾. 때로는 증상이 전혀 나타나지 않을 수도 있으며 우연히 발견되는 수가 많다⁴⁾.

진단은 단순흉부촬영만으로도 60%에서 진단이 가능하고³⁾ 식도내강내 병변이 의심되는 경우는 식도내시경검사가 필요하고, 식도조영술상에 중복증에 의하여 눌러져 있거나 옆으로 밀려있는 소견이 나타날 수 있으며⁸⁾, 식도와 교통이 되어 있는 경우 중복증내 air-fluid level이 보일 수 있다⁶⁾.

그외 폐분획증, 혈관성질환들은 감별위해 폐동맥조영술을 시행할 수 있다²¹⁾. 중복증의 크기는 환자나이와 무관하며 1 cm³, 5 cm³, 10 cm³로 다양하며³⁾ 관형인 경우 길이 65 cm까지도 보고예⁷⁾가 있다.

Cohen³⁾에 의하면 15예중 73%가 Pseudostratified columnar epithelium으로 피복되었고 평활근이 포함되었다하며, 1870年²²⁾ Wyss는 Ciliated columnar cell과 점액선이 존재하고 있는 것을 처음 발견하였다.

낭종내 피복세포는 소화기계 및 호흡기계세포들이

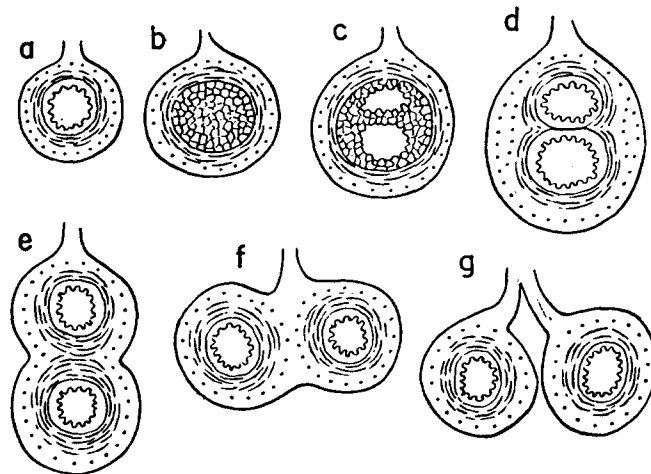


Diagram of development of duplication: (a) early stage of alimentary tube; (b) solid stage; (c) 2 vacuoles in cell mass; (d) 2 epithelial lumina with conjoined basement membranes; (e) conjoined circular muscle layers between hollow structures; (f) same in horizontal position which can progress to (g) free duplicate tubes, each with complete intestinal wall and separate mesentery.

혼합되어 나타날 수도 있으며 식도외벽의 근육을 포함하는 경우가 대부분이다⁶⁾.

해부발생학적 및 피복세포형태에 따라 분류하는 관제로 혼동을 야기하나, Kirwan³⁾의 분류가 널리 이용된다.

Kirwan(1973年)³⁾은 foregut cysts를 발생학적 차이점에 따라 다음과 같이 3가지로 분류하였다.

(1) 기관지성 : 폐발육의 결함

(2) 식도내벽성 : 식도내부 혹은 식도벽 부근에 발생되며 주로 Ciliated columnar epithelium도 피복되어 있다. (true duplication cyst) 합병증으로는 감염이 가장 많고, 소화성궤양, 기관지 폐쇄 등이 있다.

(3) 장성 : 척색증후의 분열로 초래.

중복증의 형태로는⁷⁾

1) 관형을 이루며 정상장관에서 돌출되어 나온 모양을 하는 경우.

2) Double-Barrel 형태로 장조직과 한쪽 혹은 양끝에서 교통을 하고 있는 경우

3) 낭종성 구조를 보이며 복강내 어느곳과도 유착없이 있는 경우(혼하지 않음)

4) 구형.(가장 흔한 형태)

병리학적으로는⁷⁾

1) 정상장관 조직과 점막·근육층이 존재하고 때로는 장막도 보일 수 있다.

2) 각각이 점막액으로 배열되어 있으며

3) 장관조직에 인접되어 발생하는 특징을 볼 수 있다.

소화기계 중복증은 2가지 형태에 의하여 초래되는 데¹⁸⁾

첫째, 소화관벽이 형성되는 늦은 단계에서 국소적으로 변이현상이 발생되어 생길 수 있고,

둘째, 초기단계에서 광범위하게 이상현상이 나타나므로 생기는 경우이다(split notochord syndrome). 식도중복증은 흔히 척추이상을 동반할 수 있으며, 특히 척추 이상이 동반된 경우를 Neuroenteric cyst¹⁰⁾라 하며 식도내강과 연결되는 경우도 10% 정도이다. 본 예에서는 척추이상과 식도내강과의 교통은 없었다.

Minor는¹³⁾ 중복증내 점액성물질이 약 200cc있었고, 내용물에 대한 일반세균 배양검사는 음성인 경우를 보고한 바 있으며, 본 예에서는 약 150 cc정도 점액성 물질이 있었고 세균검사상 균은 검출되지 않았다.

수술적응은 후종격동종양과 감별이 어렵고, 합병증으로 인한 출혈, 천공 및 호흡기폐쇄 등의 가능성이

있으므로 수술을 시행하여 주는 것이 좋다¹⁾.

외과적 절제술이 가장 좋은 치료법이며, 보통 염증변화가 심하지 않고 식도와 교통하지 않은 것이 많으므로 식도점막손상없이 식도벽으로 부터 쉽게 제거되기도 한다. 염증변화가 있으며 절제하기 힘든 경우도 있다¹⁹⁾.

병변이 광범위하게 있더라도 양성질환이므로, 주변 장기에 큰 손상을 주지않고 시행하는 것이 중요하며, 폐조직과 심하게 유착되어 있을 때는 경우에 따라 폐 절제술이 동반될 수도 있다⁶⁾.

본 예는 절제술로서 충분하였으며, 식도외벽의 일부 손상근육층은 봉합술을 시행하였다.

IV. 결 론

국립의료원 흉부외과에서는 식도중복증 1예를 치험하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Bower, R.A., Sieber, W.K., & Kiesewetter, W.B.: *Alimentary Tract Duplications in Children. Ann. Surg.*, 188:669, 1978.
2. Bower, R.J., & Kiesewetter, W.B.: *Mediastinal Masses in infants and Children, Arch Surg.*, 112:1003, 1977.
3. Cohen, S.R., Geller, K.A., & et al.: *Foregut cysts in infants and children Diagnosis and management. Ann. Otol Rhinol Laryngol.*, 91:622, 1982.
4. Fallazadeh, H. & Haiderer, O.: *Esophageal Duplication Cyst with Unusual manifeststions. Chest*, 63:827, 1973.
5. Gans, S.L., Lackey, D.A., and Auckerbraun, L.: *Duplications of the cervical esophagus in infants and children. Surgery*, 63:849, 1968.
6. Grosfeld, J.L., O'Neill, J.A., & Clatworthy, H.W.: *Enteric Duplications in infancy and Childhood.(An 18-year Review). Ann. Surg.*, 172:83, 1970.
7. Gross, R.E., Holocomb, G.W., & Farber, S.: *Duplications of the Alimentary Tract. Pediatrics*, 9:144, 1952.
8. Haller, J.A., Mazur, D.O., & Morgan, W.W.: *Diagnosis and management of mediastinal masses in children. J. Thora. & Cardiovasc. Surg.*, 58:385,

- 1969.
9. Haller, J.A., Shermeta, D.W. & et al: *Life Threatening Respiratory from Mediastinal Masses in Infants. Ann. Thora Surg.*, 19:364, 1975.
 10. Heimburger, I.L., & Battersby, J.S.: *Primary mediastinal tumors of childhood. J. Thora. & Cardiovasc. Surg.* 50:92, 1965.
 11. Kirwan, W.O., Walbaum, P.R. & McCormack, J.M.: *Cystic intrathoracic derivatives of the foregut and their complications. Thorax.* 28:424, 1973.
 12. Kissane: *Anderson's Pathology. 8th/Ed. C.V. Mosby Company, 1985.*
 13. Minor, C.R.: *Mediastinal Cyst. Treated by Marsupialization to the Esophagus. Ann. Surg.*, 139:230, 1954.
 14. Orrand, M.M., & Edwardols, A.J.: *Neoplstic change in duplications of the alimentary tract. Br. J. Surg.* 62:269, 1975.
 15. Pokorny, W.J., & Sherman, J.O.: *Mediastinal masses in infants and Children. J. Thora & Cardiovasc. Surg.*, 68:869, 1974.
 16. Rcsai, J.: *Ackerman's Surgical pathology. 6th/Ed. C.V. Mosby company. 1981.*
 17. Rosenak, B.D., & Vactor, H.D.: *Extramucosal intramural enteric cyst of the esophagus(A case Report). Ann. Surg.*, 66:81, 1951.
 18. Roux, B.T.: *Intrathoracic Duplication of the foregut. Thorax.* 17:357, 1962.
 19. Sethi, G.K., Marsden, D.: *Duplication Cysts of the Esophagus. South Med. J.*, 67:616, 1974.
 20. Sherman, N.J., Morrow, D., & A Sch, M.: *A triple duplication of the alimentary tract. J. Pediatric Surg.*, 13:187, 1978.
 21. Sirivella, S., Ford, W.B. & et al.: *Foregut cysts of the mediastinum. Resuls in 20 Consecutive Surgically treated cases. J. Thorac Cardiovasc Surg.*, 90:776, 1985.
 22. Tarnay, T.J., Chang, C.H., & et al: *Esophageal duplication(foregut cyst) with sinal malformation. J. Thorac Cardiovasc Surg.*, 59:293, 1970.
 23. 홍장수 : 식도근육내 낭종 1례. 대한흉부외과학회지. Vol. 14:95, No.1, Mar, 1981.