

기관지 확장증을 동반한 식도-기관지루

- 1례보고 -

정 종 수* · 김 승 규* · 김 형 준* · 지 행 옥*

- Abstract -

Broncho-esophageal Fistula with Bronchiectasis - Report of one case -

Chung, J.S. M.D.* , Kim, S.K. M.D.* , Kim, H.J. M.D.* , Jee, H.O. M.D.*

Congenital or acquired esophagotracheobronchial fistula are rare. The chief causes of the acquired form are malignancy developing on the esophagus or tracheobronchial system and infection, and trauma.

The pathognomonic symptom is a paroxysmal cough occurring several seconds after ingestion of liquids.

This report reviews a case of bronchoesophageal fistula of unknown origin accompanying bronchiectasis. The patient is 32 years old woman with excellent result by surgical intervention.

But the fistula is accidentally found in the operation field.

The surgical procedures consists of fistulectomy with Right lower lobectomy.

서 론

성인에서 발견된 식도-기관지루는 선천성 혹은 후천성이던 간에 비교적 희귀한 질환으로서 선천성이라 하더라도 원위부 식도의 폐쇄를 동반하지 않은 경우에는 미미한 식도자극증상이 오랜 기간동안 지속되다가 늦게 발견되는 경우가 많다¹⁾.

악성종양에 의한것이 아닌 후천성 식도-기관지루가 임상가들에게 홍미를 끄는 이유는 진단이 확실한 경우에 수술적 교정으로 술전의 증상이 소실되며 후에 재발이 거의 없기 때문이다²⁾.

* 한양대학교 의과대학 홍부외과학교실

*Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, School of Medicine, Hanyang University
1990년 4월 20일 접수

한양대학교 의과대학 홍부외과학교실에서는 32세 여자환자에서 각혈을 주소로 내원하여 기관지 조영술을 시행한 뒤 기관지 확장증을 진단하여 개흉술을 실시하여 수술시야에서 발견된 식도-기관지루 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 아울러 증례를 보고하는 바이다.

증례

32세 여자환자로서 어릴적에는 별 질환없이 지내 오다가 6년전에 우측 하엽에 폐염을 앓았던 과거력이 있으며 그후로 하루에 반컵정도의 화농성 객담을 배출하였고 또한 액성 음식물의 섭취시 간헐적이며 경미한 기침이 유발되었던 경우로 수술 9개월전에 갑자기 발생한 혈성객담을 주소로 본원 내과에 입원

하였다. 당시 시행한 우측 기관지 조영술상 우측 하엽의 낭포성 기관지 확장증이 있어서 일차적으로 항생제와 진해 거담제등의 약물요법을 시행하였다. 그러나 증세의 호전이 없었으며 각혈이 동반되어서 수술을 위하여 재차 내원하였다. 환자는 상기한것 이외에는 연하곤란등의 식도증상은 없었으며 특이한 과거력이나 가족력은 없었다.

내원당시 체온 36°C 심박동수 $74/\text{min}$ 호흡수 $20/\text{min}$ 혈압 $120/80\text{ mmHg}$ 이었으며 이학적 검사상 정상소견을 보였다. 검사실 소견상에서 혈액소견, 요검사, 간기능검사, 심전도등 모두 정상범위이었으며 배출한 객담의 세균배양 검사상 병원균은 발견되지 않았다.

내원당시 촬영한 단순 흉부 X-선 소견상 우측 하엽에 별집모양의 음영을 보이는 기관지 확장증소견을 보였으며(Fig. 1, 2) 내원 9개월전에 촬영한 기관지 조영술상에서도 우측 하엽의 낭포성 기관지 확장증 소견을 보였는데 술후 식도-기관지루임을 확인한 후 기관지 조영술을 재검토한 결과 식도-기관지루가 존재한 상태이었으나 간파되었음이 확인되었다(Fig. 3, 4).

수술소견 및 수술방법

우측 하엽 절제술을 예상하고 우측 제 6늑간을 통하여 우후측 흉부 개흉술을 시행하였다.



Fig. 1. 술전 흉부 정면사진 (우하엽에 별집모양의 기관지 확장증 소견을 보이고 있다)



Fig. 2. 술전 흉부 측면사진



Fig. 3. 기관지 조영술. 우측. 정면사진 (우하엽의 낭포성 기관지 확장증 소견을 보이고 식도와의 누공을 관찰할 수 있다)

우측폐의 폐흉막과 흉벽, 횡격막 그리고 열구간에 막성유착이 있었으며 우측 폐문부를 박리하던 중 우연히 우측 하엽의 후저부 기관지와 하부식도사이의 누공을 발견할 수 있었다. 누공은 길이가 3cm, 직경

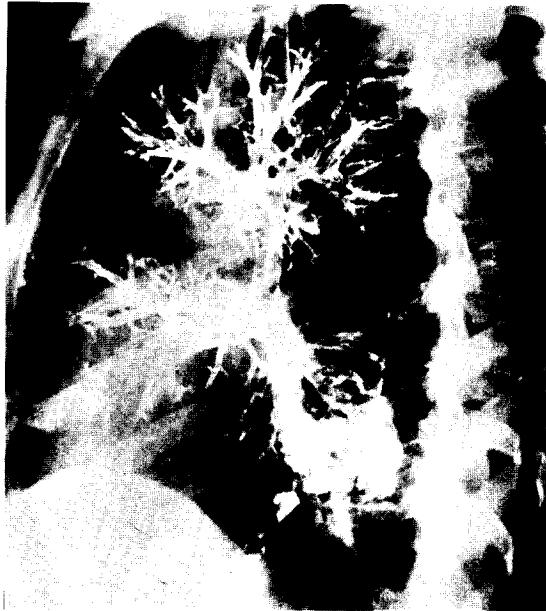


Fig. 4. 기관지 조영술, 좌측. 측면사진



Fig. 5. 절제해낸 식도-기관지루의 누공을 볼수 있다.

이 0.5cm 정도이었으며 식도와 기관지사이의 경사는 없이 동일한 위치에 있었다. 우측하엽 절제술을 우선 실시한 후 식도-기관지루를 절제하고 식도 측 단면은 이중으로 봉합한 뒤 종격동흉막으로 보강을 해준 뒤 수술을 마쳤다.

병리소견

우측하엽의 기관지들은 직경이 최고 1cm이상 확장된 기관지 확장증 소견을 보였으며 식도-기관지루는 점막이 편평상피세포로 구성되어 있고 점막하 조직이나 근육층은 보이지 않았고 염증소견이나 악성종양의 소견도 관찰되지 않았다.

술후 경과

환자는 술후 술전에 보였던 각혈을 동반한 화농성 객담과 액성 음식물 흡입시의 기침증상은 소실되었으며 술후 2주째 시행한 식도 조영술상(Fig. 6) 조영제 누출등의 이상소견은 보이지 않아서 경구로의 식사를 시작한 뒤 술후 3주만에 퇴원하여 외래로 추적관찰 중이다.

고 찰

식도와 기관지사이의 교통은 선천성인 것과 후천성인 것으로 크게 나누어 지는데 Smith³⁾등은 이를 Table 1과 같이 분류하고 있다.

성인에서의 선천성 식도-기관지루를 Braimbridge 와 Keith^{4,5)}은 4가지 형태로 분류하고 있다. 제1형 : 식도쪽에 목이 큰 계실이 있고 이것이 염증을 일으켜 폐속으로 뚫고 들어간 형태, 제2형 : 가장 간단한 형태로 식도와 폐엽 혹은 폐구역 기관지사이의 짧은 직선상의 통로를 한 형태, 제3형 : 기관지쪽에 낭종을 형성하여 이것이 식도와 교통된 상태, 제4형 : 대동맥으로부터 동맥혈의 공급을 받는 폐경리 분절속으로 누관이 연결된 상태등의 4형태로 나누고



Fig. 6. 술후 식도조영술. (식도-기관지루의 소설을 보여주며 조영제의 유출이나 협착은 보이지 않는다.)

Table 1. Classification of broncho-esophageal fistula(by Smith)

1. Benign

- a. congenital
 - i) Infants, with or without esophageal atresia
 - ii) Adults, without esophageal atresia
- b. acquired
 - i) Traumatic
 - ii) Inflammatory, either tuberculous or as a result of Mediastinitis

2. Malignant

- a. Bronchial carcinoma
- b. Esophageal carcinoma
- c. Primary or secondary hilar node metastases

있는데 본 경우는 제2형에 속하고 있다.

식도-기관지루의 선천성여부를 결정하는 인자에 대하여 Brunner⁶⁾가 주장하는 것을 보면 누관이 편평상피세포로 되어있고 점막근육층이 존재하여 신생물이나, 염증성변화가 없다는 점등인데 본 경우를 보면 누관의 내면이 편평상피로 덮여있고 신생물이나 염증성변화는 없지만 점막근육층이 없어서 선천성여부에 대한 명확한 구분이 되지 못하고 있다.

선천성인 경우라 하더라도 원위부 식도폐쇄를 동반할 때는 그 증상이 영아기에 나타나서 진단이 쉽게 이루어져 영아초기에 수술적 교정이 가능하지만⁵⁾ 그렇지 않은 경우는 증상의 발현이 6개월에서 50년 사이로 다양하며 보고자에 따라서 평균 17년이나^{1,4)}, 31년⁷⁾으로 보고하고 있다. 선천성 질환이 이렇게 늦게 증상이 나타나고 진단이 늦어지는 이유는 여러가지로 설명을 하고 있는데 첫째, 초기에는 누관에 얇은 막이 존재하다가 후에 파열된다는 설⁸⁾ 둘째, 경도의 호흡기 증상에 환자가 적응을 하게 된다는 설⁷⁾ 셋째, 식도점막의 피부판막이 후에 부전증을 일으킨다는 설⁹⁾ 네째, 누관이 식도쪽이 낮게 경사를 이루고 있다는 설¹⁰⁾ 등이다.

기관의 후부 막성부와 근위부 기관지가 식도의 전벽과 연접하여 있어서 양잿물을 흡입, 협착부위의 확대등의 조작, 교통사고, 총알등의 관통상등의 외상에 의하여 누관이 형성될 수 있다^{2,11)}.

또한 기관방, 기관기관지 임파절이 기관, 식도, 주

기관지와 연접하여 있어서 여기에 염증성변화가 발생하여 파괴되면 식도-기관지루가 형성될 수가 있다²⁾. 결핵과 매독, 방사선균증과 히스토플라즈마증등의 진균증등이 그 원인이 된다²⁾.

후천성인 경우 그 빈도가 가장 많은 것은 식도나 기관지계의 악성종양에 의한 것이다^{2,12,13)}.

발현되는 증상은 누공의 크기와 기간 그리고 원인에 따라 다양하지만 가장 흔하고 특징적인 증상은 액성음식을 섭취하면 발작성기침이 발생한다는 것이다²⁾. 그러나 Ono에 의하면 배와 위로 하여 음식물을

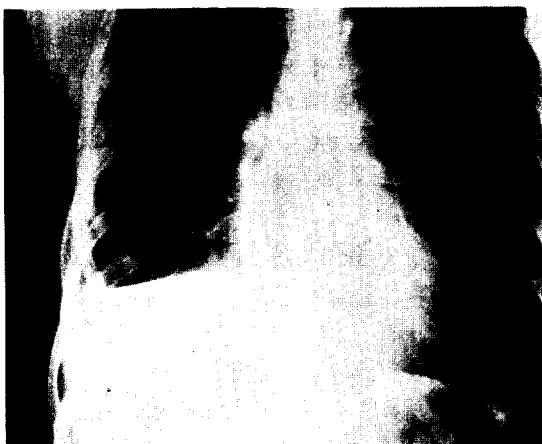


Fig. 7. 술후 흉부정면사진



Fig. 8. 술후 흉부측면사진

삼키면 기침이나 절식이 사라진다고 한다(Ono's sign)¹⁴⁾. 계속 반복되는 기침, 상기도 감염, 재발되는 폐렴, 각혈등이 자주 나타날 수 있고 폐농양, 기관지 확장증등이 동반되기도 한다¹⁵⁾.

진단을 위해서는 과거병력, 이학적 검진, 방사선 검사 및 내시경 검사등이 동원되는데²⁾ 증상이 오랫동안 지속되는 경우는 대부분이 비악성이 원인이 되며 호흡계의 증상보다도 연하곤란이 먼저 있으면 이는 악성을 의심해야 한다¹⁶⁾.

흉부단순촬영으로는 동반되는 폐병변을 나타낼 뿐 식도-기관지루의 존재를 알 수는 없으며 누공이 의심되면 Hypaque 등의 iodized oil을 사용하여 식도 조영술을 시행함으로써 확진이 가능하다¹⁵⁾. 이때 단순한 식도조영술에 의해서는 진단이 어렵고 활동투시법을 이용한 식도조영술의 효과가 우수하다. 기관지 조영술을 기관지 확장증이 의심되는 경우에 실시한다¹⁷⁾.

식도나 기관지 내시경검사를 시행함으로써 모든 경우에 해당되지는 않지만 누공의 위치와 범위를 확인할 수 있으며¹¹⁾ 생검등의 병리학적 검사와 미생물학적인 검사를 시행할 수 있다²⁾. 또한 기관지 내시경검사를 시행하면서 식도에 Methylene blue를 넣어서 누공을 통하여 유출되는 것을 확인할 수 있다²⁾.

성대의 부전증을 야기시키는 인두와 후두의 병변을 제외시키기 위해서는 후두경검사를 시행한다²⁾.

진단이 일단 되면 수술적요법으로 교정을 하여야 하는데 수술의 적기²⁾는 환자의 신체적 상태가 적응이 될 경우가 해당되므로 예를 들면, 활동성 염증이 있을 경우는 항생제등의 약물요법과 비 경구적 영양요법등으로 전신상태를 호전시킨뒤에 수술을 시행하게 된다. 간접적인 요법이 사용되기도 하는데 누공이 적은 경우에는 내시경하에 silver nitrate 나 sodium hydroxide로 소작시키는 방법등을 사용하기도 하지만 이들의 효과는 기대할 만 하지 못하다¹⁸⁾.

가장 이상적인 치료방법은 개흉술로써 식도-기관지루를 직접 노출시켜서 이를 분리하고 양단을 봉합하여 주는 것이다. 누공의 크기가 큰 경우에는 식도 결손부위를 주위의 조직으로써 보강하여주는 것이 상당한 의의가 있다. 악성종양에 의한 식도-기관지루는 완치요법이 불가능하므로 그 치료의 목적¹⁶⁾은 심한 발작성 기침을 소실시키고 정상적인 연하작용

을 가능케하는 것이다. 이를 위해서 식도내 플라스틱 식도관의 삽관, 기관의 결손부위를 근막이나 늑간근육을 사용하여 보강하는 방법등을 사용하였으나 그 효과가 좋지 못하고 가장 많이 사용하는 방법은 대장, 위장, 공장등을 사용한 우회수술이다¹⁶⁾. 또한 폐농양이나 기관지 확장증등의 폐병변이 동반된 경우에는 폐절제술도 함께 실시하게 된다^{2,19)}.

직접적인 수술요법으로 교정을 한 경우에는 술전 증상이 거의 소실되며 술후 합병증이나 재발도 별로 보고된 것이 없다.

결 론

한양대학교 의과대학 흉부외과학교실에서는 32세 여자환자에서 각혈을 주소로 내원하여 기관지 조영술을 시행한 뒤 기관지 확장증의 진단하에 개흉술을 실시하여 우연히 발견된 식도-기관지루 1예를 치험하였기에 문헌고찰과 아울러 그 증례를 보고하였다.

REFERENCES

1. Bekoe, S., Magovern, G.J., Liebler, G.A., Park, S.B., Cushing, W.J. : *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*, Chest 66:201, 1974.
2. Anderson, R.P., Sabiston, D.C. Jr. : *Acquired bronchoesophageal fistula of benign origin*. Surg. Gynec and Obst. 121:261, 1965.
3. Smith, D.C. : *A congenital broncho-esophageal fistula presenting in adult life without pulmonary infection*. Brit. J. Surg. 57:398, 1970.
4. Braimbridge, M.V., Keith, H.I. : *Esophago-bronchial fistula in the adult*. Thorax. 20:226, 1965.
5. Salepcioglu, A., Cebeci, H., Saner, H., Akcal, T. : *Congenital esophago-bronchial fistula in the adult*. Brit. J. Surg. 64:581, 1977.
6. Brunner, A. : *Esophagobronchial fistulae*. Munch. Med. Wochenschr. 103:2181, 1961.
7. Blackburn, W.R., Amoury, R.A. : *Congenital esophago-pulmonary fistulas without esophageal atresia: An analysis of 260 fistulas in children*

- and adults. Rev. Surg.* 23:153, 1966.
- 8. Jackson, C., Coates, G.M. : *The Nose, Throat and Ear and their Diseases. Philadelphia, WB Saunders Co. P1124, 1929.*
 - 9. Negus, V.E. : *Oesophagus from a middle-aged man, showing a congenital opening into the trachea. Proc. R. Soc. Med.* 22:527, 1929.
 - 10. Demong, C.V., Grow, J.B., Heitzman, G.C. : *Congenital tracheoesophageal fistula without atresia of the esophagus. Am. Surg.* 25:156, 1959.
 - 11. Wychulis, A.R., Ellis, F.H. Jr., Anderson, H.A. : *Acquired nonmalignant esophagotracheobronchial fistula. JAMA.* 196:117, 1966.
 - 12. Monserrat, J.L. : *Fistulas tuberculosas esofagotraqueo-bronquicas. Rev. As. Med. Argent.* 155:438, 1941.
 - 13. Moersah, J.J., Tinney, W.S. : *Fistula between esophagus and tracheobronchial tree. M. Clin. North. America.* 28:1001, 1944.
 - 14. Lukens, R.M., Ono, J. : *Syphilitic tracheoesophageal fistula: Report of case. Laryoscope.* 44:334, 1934.
 - 15. Nelson, R.J., Benfield, J.R. : *Benign esophagobronchial fistula: a curable cause of adult pulmonary suppuration. Arch. Surg.* 100:685, 1970.
 - 16. Ong, G.B., Kwong, K.H. : *Management of malignant esophagobronchial fistula. Surg.* 67:293, 1970.
 - 17. Hughes, F.A., Fox, J.R. : *Acquired non-malignant esophagotracheobronchial fistula. J. Thorac. Surg.* 27:384, 1954.
 - 18. Clerf, L.H. : *Esophagobronchial fistula; report of two cases. Tr. Am Laryng. Rhino. and Otol. Soc.* p35, 1945.
 - 19. Coleman, F.P. : *Acquired nonmalignant esophagorespiratory fistula. Am. J. Surg.* 93:221, 1957.