

성인에서 발견된 선천성 기관·식도루

김 응 수* · 강 종 렬* · 이 준 영**

=Abstract=

Congenital Tracheoesophageal Fistula in an Adult

Eung Soo Kim, M.D. *, Jong Yael Kang, M.D. *, Joon Yong Lee, M.D. **

Congenital esophago-respiratory fistulae in adults have rarely been reported. Moreover, most of those are the cases of bronchoesophageal fistulae, that is to say esophago-lower respiratory fistulae. We experienced case of a congenital tracheoesophageal fistula in an adult, not a bronchoesophageal fistula. At our hospital, a 20-year-old male with recurrent episodes of a paroxysmal (especially postprandial) cough, respiratory infection and relative growth retardation had been diagnosed by using esophagography and esophagoscopy as having a congenital tracheoesophageal fistula with a concomitant esophageal diverticulum. The surgical correction was done successfully. We are excited to report a case of a congenital tracheoesophageal fistula in an adult, which is believed to be the first case of its kind in Korea.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1999;32:322-5)

Key word : 1. Tracheoesophageal fistula
2. Fistula

증 레

1996년 2월, 20세 남자가 어릴 때부터 지속된 기침과 발열을 주소로 한일병원 흉부외과에 내원하였다. 환자는 식사할 때 발작적인 기침이 난다고 하였는데 물을 먹으면 더욱 심하다고 호소했다. 과거력상 정상 체중으로 태어났으나 유아시기에 잦은 감기와 폐렴으로 빈번한 치료를 받은 적이 있었다. 3세 때는 폐렴으로 병원에 2차례 입원하였으나 원인을 발견하지 못하고 퇴원하였고 의사의 권유에 따라 1년 간 L튜브를 통해 음식을 섭취하였다. 그후에도 수차례 폐렴으로 치료 또는 입원한 적이 있었다. 그러나 기관삽관이나 인공호

흡기 치료를 받은 적이 없었으며 흉부에 특별한 외상을 입었던 과거력은 없었다.

혈액검사에서는 백혈구 $15,000/\text{mm}^3$, 혈색소 13.5 gm%, 혈소판 $250,000/\text{mm}^3$, 적혈구침강속도 3 mm/hr로 약간의 염증소견을 보였다. 단순 흉부촬영을 시행하니 확장된 식도가 기관의 좌측방으로 판찰되었으며 우측 상폐엽과 좌측 하폐엽에 폐렴 및 기관지확장증 소견이 보였다(Fig. 1). 따라서 상기 소견으로 기관·식도루를 의심하여 식도조영술을 비롯한 여러 가지 검사를 시행하였다.

식도조영술은 검사 도중 발작적인 기침으로 불완전하게 촬영되었다. 그러나 식도가 조영되면서 바로 좌측 주기관지

*한국전력 부속 한일병원 흉부외과

Department of Thoracic & Cardiovascular Surgery, Hanil General Hospital, KEPCO, Seoul

**서립 서대문병원 흉부외과

Department of Thoracic & Cardiovascular Surgery, Seodaemoon Municipal Hospital, Seoul

† 본 연제는 1997년 10월 18일 '한일병원 개원 60주년 기념 국제 심포지움'에서 구연되었음.

논문접수일 : 98년 5월 11일 심사통과일 : 98년 10월 1일

책임저자 : 김응수, (132-703) 서울특별시 도봉구 쌍문3동 388-1, 한일병원 흉부외과. (Tel) 02-901-3471, (Fax) 02-901-3474

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

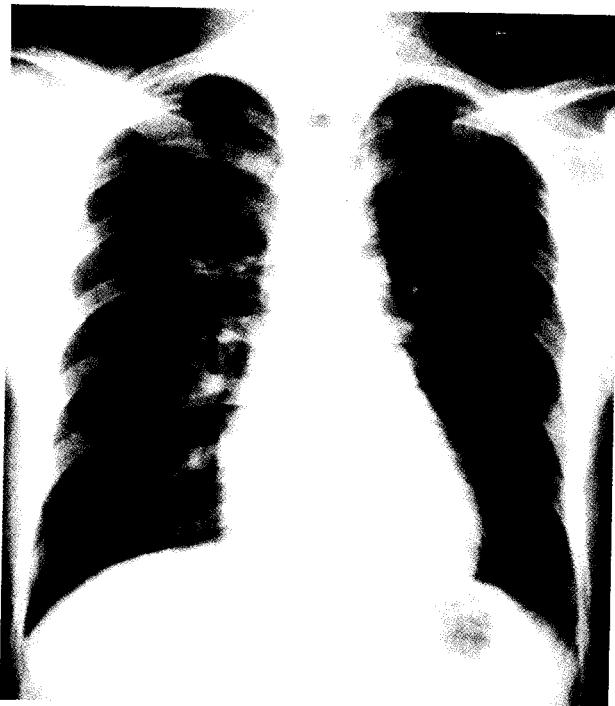


Fig. 1. Preoperative simple chest X-ray: showing the dilated upper esophagus on the left side of trachea, and the pneumonic infiltrations and bronchiectatic changes in right upper lobe and left lower lobe.

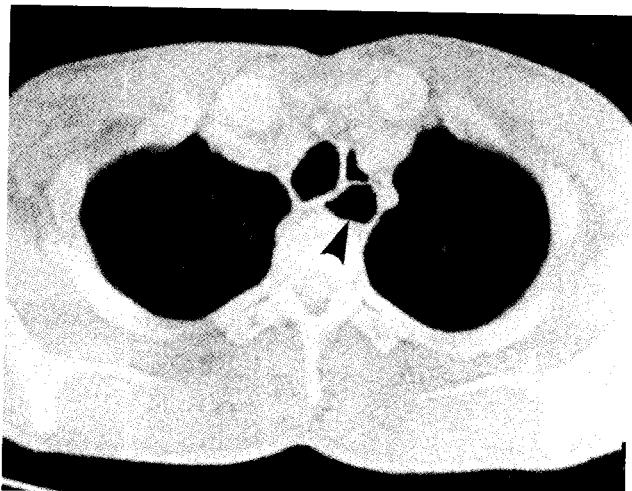


Fig. 3. Preoperative chest CT : showing the stereoscopic location of mediastinal structures; trachea, esophagus and esophageal diverticulum(arrowhead).

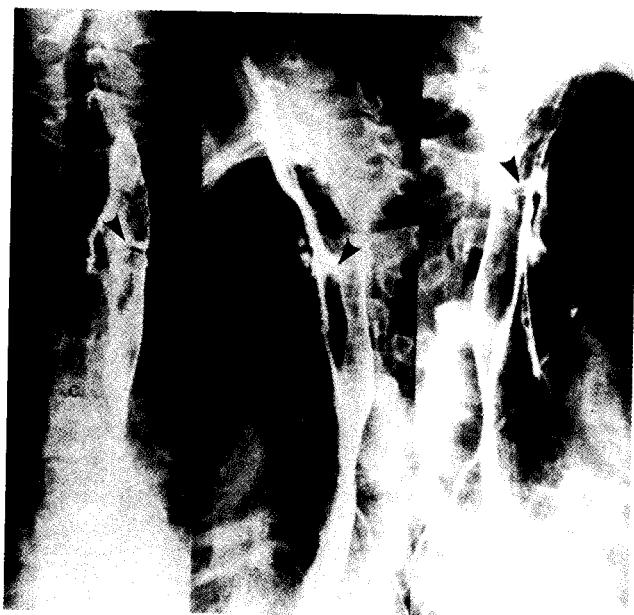


Fig. 2. Preoperative esophagogram: through the fistula tract, the left main bronchus is shown. arrowhead shows the fistula tract, c indicates the carina.

가 드러났으며 기관지분기부에서 7 cm 상방의 제4 흉추간에 기관·식도루가 발견되었다. 누공의 길이는 1 cm 정도였으며

식도측의 개구부는 직경 2.5 mm, 기관측의 개구부는 직경 1.5 mm 정도였다. 또한 식도측의 개구부가 기관측의 개구부보다 약 25° 높은 부위에 있었다. 식도와 기관·식도루에 특이한 염증 소견은 나타나지 않았다(Fig. 2). 흉부 전산화 단층 촬영에서는 식도가 확장되어 있었으나 기관식도루는 정확하게 나타나지 않았다. 한편 기관·식도루로 추정되는 장소의 좌후방으로 기관·식도루와 상관 없는 독립된 식도계실이 발견되었다(Fig. 3). 단순 흉부촬영에서와 마찬가지로 우측 상폐엽과 좌측 하폐엽에 폐렴 및 기관지확장증 소견이 보였다. 수술을 위해 식도내시경과 기관지내시경을 시행하였다. 식도내시경을 시행하니 상부 식도에 다른 방향의 2개의 개구부가 관찰되었는바 1개는 기관·식도루의 누공으로, 다른 1개는 식도계실로 추정되었으며(Fig. 4) 기관지내시경에서는 성대에서 5.5 cm 하방의 7시 방향으로 있는 누공으로 식도를 통해 주입한 methylene blue가 흘러나왔다.

이상과 같은 검사로 Braimbridge II형의 선천성 기관·식도루와 동시에 발견된 식도계실로 진단하여 수술에 들어갔다. 수술은 우측 제4늑간으로 개흉하였다. 우측 상폐엽의 기관지 확장증이 있는 후분절 부위에 직경 4 cm 정도의 아주 심한 유착이 있어 어렵게 박리하였으며 기정맥을 분리한 뒤 종격동 흉막을 종으로 절개하여 식도를 박리하였다. 기관·식도루는 제4 흉추 추간판 위치에 있었다(Fig. 5). 먼저 기관·식도루를 박리한 후 3-0 Prolene을 이용하여 기관 쪽을 봉합하였으며 식도 쪽은 점막을 분리하여 3-0 Vicryl을 이용하여 이중봉합을 시행하였다. 식도계실은 제4 흉추에 딱 붙어 식도를 개방한 후 봉합을 시행하였다. 기관·식도루 주변에 염증성 변화는 없었다. 기관·식도루를 절제하여 나간 조직검사 결과에



Fig. 4. Preoperative esophagoscopic finding: showing 2 openings; the upper is an opening of esophageal diverticulum, the lower is an opening of the fistula tract.

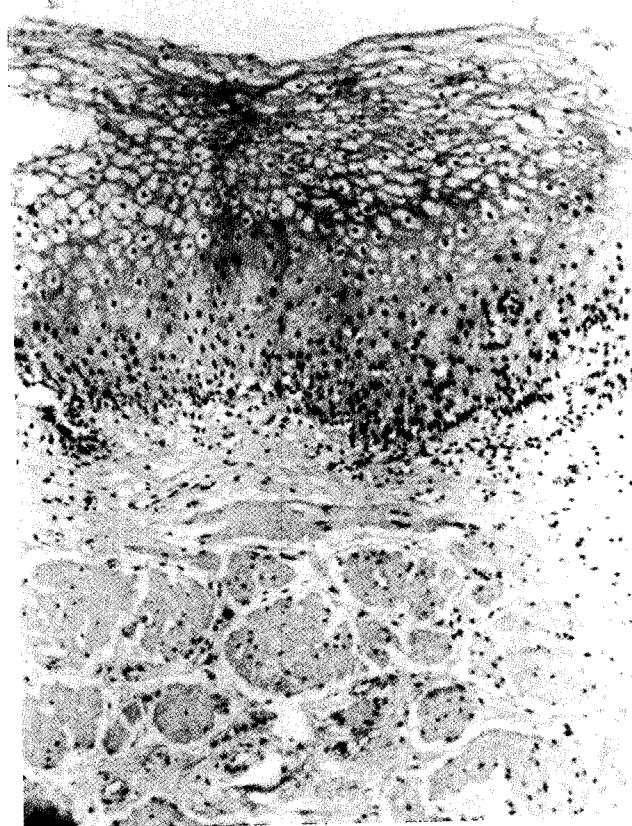


Fig. 6. Microscopic findings of the resected fistula : showing the squamous epithelium lining esophageal mucosa and the esophageal muscle layer beneath mucosa.

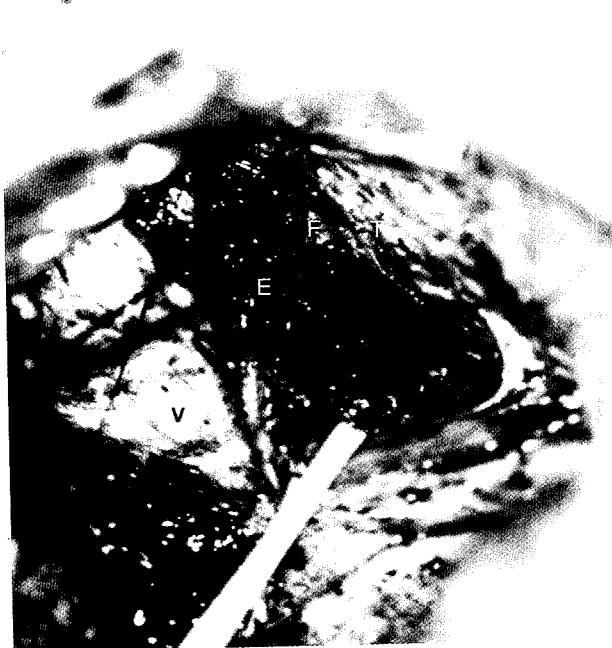


Fig. 5. Intraoperative photograph of tracheoesophageal fistula : on retracting the esophagus with Nelaton catheter and umbilical tape, the fistula is shown. V, thoracic vertebra. E, esophagus. F, tracheoesophageal fistula. T, trachea.

서 식도 점막조직과 식도근육이 동시에 관찰되어 선천성 기관·식도루임이 확인되었다(Fig. 6).

술후 5일째 시행한 식도조영술에서 기관·식도루가 폐쇄되었음을 확인하였고 별문제 없이 술후 11일째 퇴원하였다. 퇴원후 3개월 동안 잔존하는 폐렴과 기관지확장증에 대한 치료를 추가하였다. 2년간 추적관찰 결과 양호한 경과를 보이고 있다.

고 찰

선천성으로 호흡기와 식도가 교통하는 호흡기·식도루는 드문 질환으로 성인 연령까지 생존하여 발견되기는 매우 어렵다. 이러한 H 모양의 호흡기·식도루는 1873년 Lamb 등이 최초로 기술하였고 대략 10만명 당 1명 정도 발견된다고 한다. 이러한 호흡기·식도루는 대부분의 경우 영아기나 유아기 때 진단되며 음식물 섭취시 잦은 기침과 사래, 복부팽창으로 의심할 수 있다. 누공을 통한 흡인성 폐염으로 흔히 생명을

위협받는다.

이러한 호흡기·식도루가 아주 드물게 성인 연령에서 발견되기도 하는데 식도조영술로 확진될 수 있다. 성인에서 발견된 선천성 호흡기·식도루는 다른 선천성 기형과는 잘 동반되지 않는 반면에 오랜 기간에 걸쳐 만성적인 음식물 흡인에 따른 만성 폐렴 증세와 만성 폐쇄성 폐질환, 기관지 확장증을 동반하는 경우가 많다. 이러한 호흡기·식도루가 성인에서 발견될 수 있는 이유는 누공에 얇은 막이 있어 늦게 이막이 파열되거나 누공의 크기가 작아 경도의 호흡기증상에 적응된 경우, 식도 쪽이 낮은 위치여서 음식물 흡인이 쉽게 되지 않는 경우 등이 있을 수 있다. 이에 더하여 식도측 개구부 가까이 점막 주름이 있거나 연동운동에 의해 개구부가 막힐 경우, 한정된 폐엽이나 분절에 국한되어 만성적인 증상에 대해 환자가 적응하는 경우 등으로 설명될 수 있다^{1,2)}.

이러한 호흡기·식도루의 진단은 식후 발작적인 기침과 반복되는 폐렴이 있는 환자에서 식도조영술을 시행함으로써 진단할 수 있다. 이러한 호흡기·식도루의 선천성 여부는 누공의 점막이 편평상피로 되어 있거나 누공에 근육층이 있는 경우이며 주위에 염증성 반응이나 악성 신생물의 증거가 없어야 한다³⁾.

이러한 호흡기·식도루가 성인에서 발견되는 경우 기관지 분기부 이하의 주기관지에 누공이 있는 기관지식도루가 대부분이며 선천성 기관지·식도루도 우리나라에서도 인제의대 백병원 및 서울대학병원 등에서 약 40예 보고되어 있고 본 한일병원에서도 3예 수술하였다^{4~6)}. 그러나 선천성 기관·식도루는 세계적으로 드물며 우리나라에서는 보고된 바 없다.

이러한 기관·식도루는 흉곽입구, 즉 제3 흉추 상방인 경우가 많아 경부절개가 이용된다. 그러나 그 이하는 흉부절개를 권한다^{7, 8)}. 또한 수술 중 누공의 확인을 위해 도자나 혈관용 유도 철사선을 술전에 기관지내시경을 시행하여 삽입해 두면 수술에 용이하다고 한다⁹⁾.

참 고 문 헌

1. Le Roux, Williams MA. *Congenital esophagobronchial fistula with presentation in adult life*. Br J Surg 1968;55: 306-8.
2. Chu W, Mullen JL. *Congenital bronchoesophageal fistula in the adult*. JAMA 1978;239:855-6
3. Brunner A. *Ösophago-bronchiale fisteln*. Münch Med Wschr 1961;103:2181-4.
4. 광영태, 김동원, 맹대현, 이신영, 김정숙, 최수전. 성인 식도 기관지루의 외과적 치료. 대흉외지 1996;29:67-72.
5. 염호기, 최수전, 김동순. 한국내 성인에서의 선천성 기관지식도루. 결핵 및 호흡기질환 1997;44:907-13.
6. Kim JH, Park KH, Sung SW, Rho JR. *Congenital bronchoesophageal fistula in adult patients*. Ann Thorac Surg 1995;60:151-5.
7. Albuquerque KV, Deshpande RK, Desai PB. *Cervical approach for repair of congenital tracheo-esophageal fistula presenting in an adult*. J Postgrad Med 1993;39: 216-7.
8. Holman WL, Vaezy A, Postlethwait RW, Bridgman A. *Surgical treatment of H-type tracheoesophageal fistula diagnosed in an adult*. Ann Thorac Surg 1986;41:453-4.

=국문초록=

선천성 호흡기·식도루가 성인에서 발견되는 경우는 매우 드물다. 선천성 호흡기·식도루는 수술하지 않으면 대부분 영아기에 사망하는데 간혹 H 모양의 호흡기·식도루가 생존하여 성인 연령에서 발견되기도 한다. 성인에서는 주로 반복되는 폐렴이나 기관지확장증 같은 만성 염증성 질환을 보여 우연히 진단되는 경우가 많다. 성인 연령까지 생존하는 호흡기·식도루는 대체로 좌우 주기관지 이하의 하부 호흡기기에 연결된 기관지·식도루로 우리나라에서는 40예 정도 보고되어 있다. 그러나 상부 호흡기인 기관과 연결된 기관·식도루는 보고되어 있지 않다. 한일병원 흉부외과에서는 우리나라 최초로 성인 연령에서 발견된 선천성 기관·식도루 1예를 수술치험하였기에 보고하는 바이다.

중심단어: 1. 선천성 기관·식도루
2. 누공