

흉선암 절제술 후 발생한 양측성 횡격막 마비의 치유

— 1예 보고 —

김재욱* · 김승우* · 김연수** · 류지윤** · 김욱성**
장우익** · 진재용*** · 김민경**** · 김태식*****

Treatment of Bilateral Diaphragmatic Paralysis after Resection of Thymic Carcinoma

— One case report —

Jae Wuk Kim, M.D.* , Seung Woo Kim, M.D.* , Yeosoo Kim, M.D.** , Ji Yoon Ryoo, M.D.** , Wook Sung Kim, M.D.**
Woo-ik Chang, M.D.** , Jae-Yong Chin, M.D.*** , Min-Kyung Kim, M.D.**** , Tae Sik Kim, M.D.*****

Bilateral diaphragmatic paralysis is a rare disease. It is caused by trauma, cardiothoracic surgery, neuromuscular disorders, cervical spondylosis, and infection. A 60 year-old male patient developed bilateral diaphragmatic paralysis after an en-bloc resection of thymic carcinoma which invaded the right upper lobe, pericardium, superior vena cava and innominate vein. Severe respiratory difficulty developed and ventilator weaning was impossible. We performed bilateral diaphragmatic plication. After the operation, satisfactorily ventilator weaning and sleeping in supine position were possible; therefore, we report this case.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2003;36:985-990)

Key words: 1. Diaphragm
2. Diaphragm, physiopathology
3. Thymus neoplasm

증례

환자는 60세 남자로 1개월 전부터 시작된 기침을 주소로 내원하였다. 과거력상 40 pack year의 심한 흡연자였고, 주 2~3회 소주 1병 정도를 마셨으며, 이학적 검사에서 특

이 소견은 없었다. 단순 흉부 촬영에서 전종격동에 경계가 불명확한 종양이 보였다. 흉부 전산화단층촬영에서 전종격동에 엽상의 부분적으로 석회화를 동반한 약 7 cm 크기의 종양이 관찰되었다(Fig. 1). 이 종양은 대동맥과 상대정맥 사이로 기어들어가는 양상을 보였고, 우측 상위 기

*인제대학교 서울백병원 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Inje University Seoul Paik Hospital

**인제대학교 일산백병원 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Inje University Ilsan Paik Hospital

***인제대학교 일산백병원 호흡기내과학교실

Department of Pulmonary Internal Medicine, Inje University Ilsan Paik Hospital

****인제대학교 일산백병원 병리학교실

Department of Anatomical Pathology, Inje University Ilsan Paik Hospital

*****고려대학교 해부학교실

Department of Anatomy, Korea University Medical College

논문접수일 : 2003년 7월 23일, 심사통과일 : 2003년 10월 14일

책임저자 : 김연수 (411-706) 경기도 고양시 일산구 대화동 2240, 일산백병원 흉부외과학교실

(Tel) 031-910-7366, (Fax) 031-910-7614, E-mail: kimyns@ilsanpaik.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

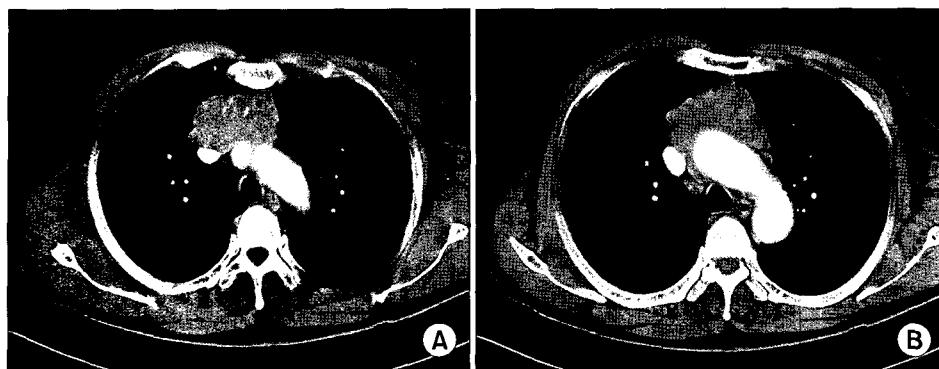


Fig. 1. Preoperative chest CT. A=Anterior mediastinal mass with lobulating contour is compressing SVC*; B=The mass goes through between SVC and aorta. *=Superior vena cava.

관주위 림프절이 커져 있었으나, 양측 폐와 흉막에 전이 소견은 없었다. 방사선 사진은 악성 흉선종으로 판독되었다. 골 동위원소 검사에서는 특이 소견은 없었고, 폐기능 검사는 FVC (forced vital capacity) 2.8l (75% of predicted value), FEV₁ (forced expiratory volume in 1 second) 1.5 l (56% of predicted value), FEV₁/FVC는 54%로 폐쇄성 환기 장애가 있었다(Fig. 4-A). 경피세침조직검사를 시행하여 교원세포조직(collagenous fibrous tissue)을 얻었으며, 병리학 소견에서는 고립성 섭유종으로 판단되었다.

수술은 전신마취하에 양와위로 전중흉골절개술 후 시행하였다. 종양은 전중격동에 위치하였고, 엽상으로 나누어지는 양상이었으며 단단하였고, 크기는 10×6.3×4 cm였다. 종양은 무명정맥의 대부분을 싸고 있었으며, 상대정맥을 부분적으로 3/4 정도 감싸며 침윤하였고, 우상엽과 심막의 일부를 침윤하고 있었다. 심막강 내부와 흉강 내부로의 전이는 없었다. 수술은 우상엽 침윤부를 쇄기절제하였고, 상대정맥 일부와 무명정맥 대부분을 절제하였고, 침윤된 심막을 제거하여 종양을 en-bloc으로 절제하였고, 림프절 절제술을 시행하였다. 소의 심막(bovine pericardium)을 이용하여 이식편을 만들어 상대정맥과 무명정맥을 재건하였다. 조직병리검사 결과, 흉선에서 생긴 평형세포암(WHO category C)으로 상대정맥, 무명정맥, 흉막, 장축 흉막을 침윤한 것이 확인되었다(Fig. 2). 절단면 일부에서 암세포가 있었고, 폐실질과 림프절에 전이는 없었다. 수술 후 병기는 Masaoka stage III였다.

수술 후 중환자실로 이송하였고, 인공호흡기를 거치하였다. 수술 후 시행한 흉부 방사선 사진에서는 특이 소견이 없었다(Fig. 3-A). 의식이 완전히 회복되어 발관(extubation)하였으나, 발관 후 빈호흡(35~56/min)과 모순호흡(paradoxical respiration)을 나타냈다. 산소를 5 l/min로 주며 시행한 동맥혈 검사에서 pH 7.12, PaCO₂ 54.8, PaO₂ 152, BE

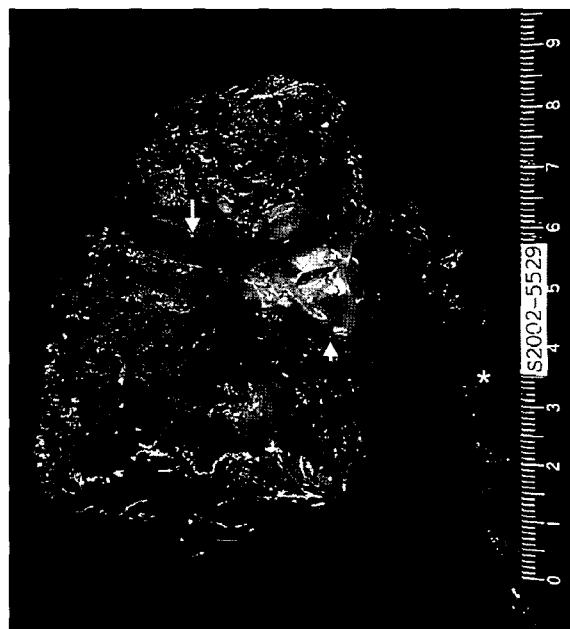


Fig. 2. This shows posterior surface of specimen resected by coronal section. Arrow indicates incased innominate vein. Arrow head indicates invaded superior venacava. Star indicates resected right upper lung.

12.8로 이산화탄소가 축적되고 산증(acidosis)이 있었다. 흉부 방사선 촬영을 시행하였으며 양측 횡격막이 거상된 소견이 있었다(Fig. 3-B). 발관 2시간 40분 경과 후, 더 이상 자발 호흡을 유지하기 어려워 다시 삽관(intubation)하였고 인공호흡기를 거치하였다. 수술 후 1일째 이식편 내의 혈전 형성을 막기 위해 저분자량해파린(lower molecular weight heparin)을 투여하기 시작하였다. 수술 후 2일째 자발 호흡의 FVC가 400 ml이고, 모순호흡이 지속되어 임상적으로 양측성 횡격막 신경 마비로 진단하였다. 술 후 5일째 우측 흉강 상부에서 혈흉이 발생하여, 폐쇄식 흉관삽

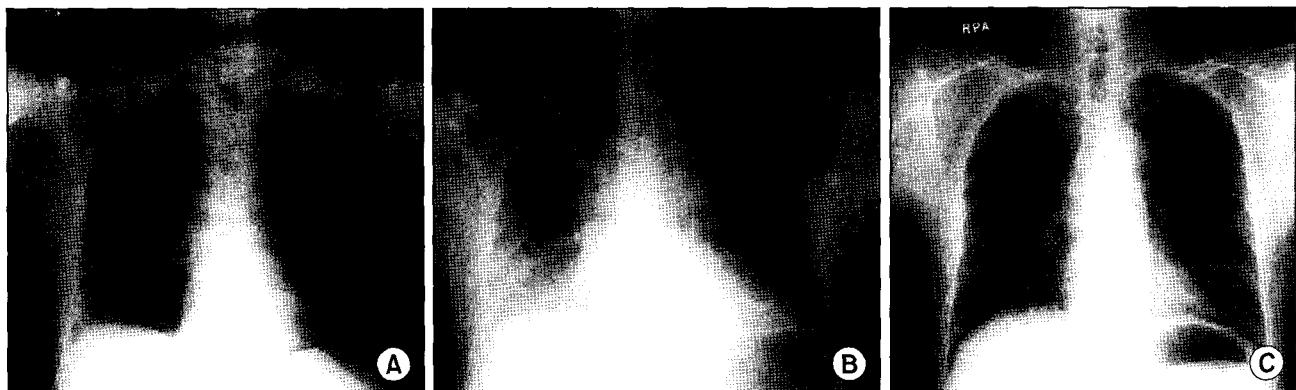


Fig. 3. Prepllication and post plication chest X-ray. A=Prepllication (chest X-ray after thymectomy, intubation state); B=Prepllication (chest X-ray after thymectomy, extubation state); C=73 days after plication.

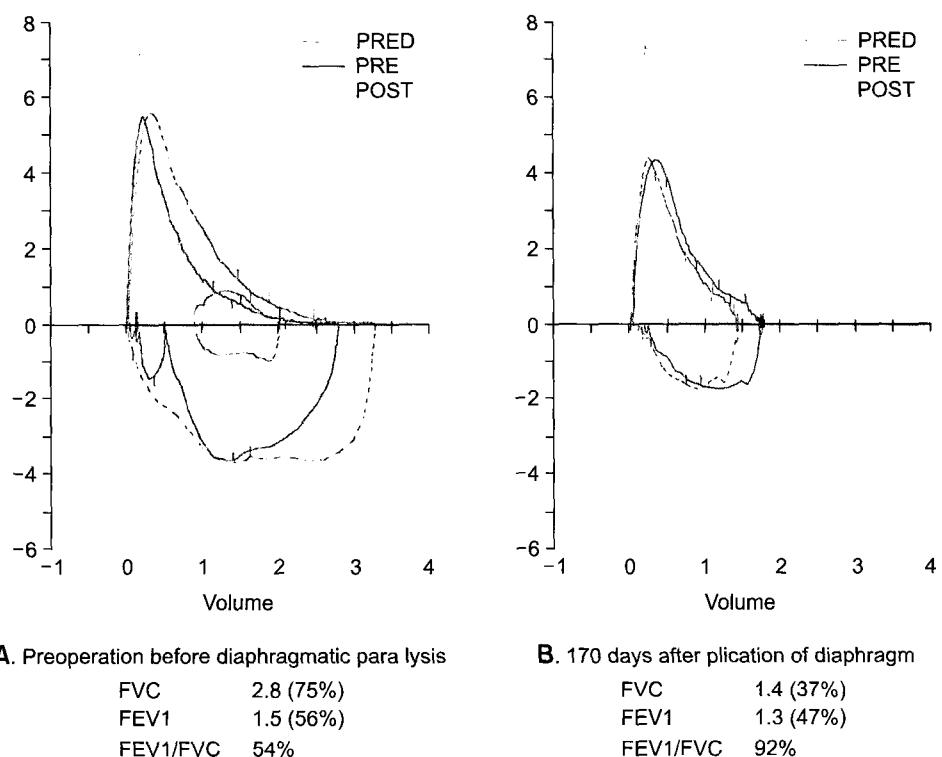


Fig. 4. Preoperative and post operative flow-volume curve. Marked restrictive pattern ventilatory defect developed after bilateral plication of diaphragm. The FEV1 is relatively preserved after plication.

관술을 시행하였다. 술 후 6일째 혈흉 소견이 증가되고, 모순호흡이 지속되었고, 빈맥과 저혈압을 보이고, 혈색소가 6.6 g/dl로 감소하여 응급수술을 시행하였다. 기존 정중 흉골절개를 통하여 개흉하였고, 내유동맥견인기(internal mammary retractor)를 이용하여 시야를 확보하였다. 우측

횡격막 신경이 절단되어 있는 것이 확인되었으나, 좌측 횡격막 신경의 손상부위는 확인할 수 없었다. 우측 폐 첨부에서 공기 유출과 함께 출혈이 있었다. 혈종을 제거하고, 출혈 부위를 지혈하였고, 양측 횡격막 주름성형술을 시행하였다. 횡격막을 절개하지 않고 흉강 안에서 당겨

올린 후, 타래(pledget)를 맨 Ethibond 2-0를 사용하여 단속 봉합하여 주름성형술을 시행하였다. 소의 심막으로 재건한 무명정맥과 상대정맥의 이식편은 완전하였으나, 재건된 무명정맥을 절제하고 대복재정맥(greater saphenous vein)을 이용하여 나선이식편(spiral graft)을 만들어서 무명정맥과 우심방귀(auricle of right atrium) 사이의 우회술을 시행하였다.

환자는 수술 후 우측폐 부종 및 전신적인 부종이 있어, 인공호흡기 및 이뇨제를 사용하여 치료를 하였다. 횡격막 주름성형술 후 7일째 압력보조 지속성기도양압(continuous positive airway pressure with pressure support)으로 바꾸었고, T-관을 이용하여 자발 호흡 시간을 늘려나갔다. 횡격막 주름성형술 후 8일째 자발 호흡에서 일회호흡량(tidal volume)이 300 ml였다. 횡격막 주름성형술 후 18일째 기관절개술(tracheostomy)을 시행하였다. 횡격막 주름성형술 후 25일째 T-관을 이용한 자발호흡만으로 밤을 보낼 수 있었다. 그 후 T-관을 이용한 자발 호흡과 BiPAP (bilevel positive airway pressure)을 번갈아가며 사용하였고, BiPAP의 시간을 줄여나갔다. 횡격막 주름성형술 후 69일째 기관개구 부위의 판을 제거하였다. 횡격막 주름성형술 후 75째 시행한 대기에서의 동맥혈 검사는 pH 7.38 PaCO₂ 57 PaO₂ 68 BE 6.8로 이산화 탄소가 증가되어 있었으나 산증은 없었고, 환자가 적응 가능한 상태였다. 횡격막 주름성형술 후 81일째 퇴원하였다. 퇴원 후 외래에서 폐기능 검사를 시행하였다. 횡격막 주름성형술 6개월 후 시행한 폐기능검사는 FVC (forced vital capacity) 1.4 l (37%), FEV1 (forced expiratory volume in 1 second) 1.3 l (56%)로 FEV1/FVC 92%로 폐쇄성 및 제한성 환기 장애를 보였으나(Fig. 4-B), 일상생활 및 누워서 취침이 가능하였다. 현재 재발의 소견 없이 13개월째 추적 관찰 중이며, 재건된 상대정맥과 무명정맥의 혈전 형성 예방을 위해 warfarin 투여 중이다.

고 찰

횡격막 마비는 외상, 심흉부 수술, 신경근육질병, 경부 척추굽음증(cervical spondylosis), 감염 등에서 나타날 수 있으나[1], 양측성 횡격막 마비는 드물게 발생한다. 횡격막 마비의 증상은 인공호흡기 이탈 실패, 횡격막의 거상, 호흡곤란, 불균형한 호흡 양상, 모순호흡, 반호흡, 반복되는 폐렴, 반복되는 폐허탈이다[2]. 횡격막 마비의 진단은 임상 증상과 이학적 검사, 흉부 단순촬영, 투시검사(fluro-

scopy), 초음파 검사로 진단할 수 있다[2]. 폐기능과 연령 등, 여러 변수에 따라 증상 없이 방사선학적 비정상 소견만을 보이는 경우에서, 심한 폐기능 장애를 일으키는 경우까지 다양한 예후를 나타낼 수 있다. 원발성 폐기능 장애가 있는 환자에서는 위험성이 증가하며 횡격막 마비로 사망할 수도 있다. 양측성으로 발생한 횡격막 마비는 심한 호흡곤란이 나타나고, 누운 자세에서 수면을 취할 수 없으며, 인공호흡기 이탈이 불가능할 수도 있다. 이런 상태는 폐심장증(cor pulmonale)으로 악화된다[3].

1954년 Bingham 등[4]이 횡격막 마비에 대한 치료로 횡격막 주름 성형술(diaphragmatic plication)을 처음 시작하였으며, 여러 가지 다양한 방법으로 시행될 수 있지만 크게 두 가지로 분류할 수 있다. 첫째는 횡격막을 절개하지 않는 방법으로 횡격막을 함입(invagination)시켜 복강쪽으로 밀어 내리거나, 또는 흉강 안에서 당겨서 접어 주름잡는 술식이다. 둘째는 횡격막을 절개하는 방법으로 확대, 신장되어 있는 전막부를 잘라내고 봉합하는 술식이다. 필요에 따라 근막이나 인조물질로 보강할 수 있다. 최근 흉강경을 이용한 수술이 발달함에 따라, Mouroux 등[5]은 횡격막 수술에 있어서도 이를 응용한 최소 침습적인 방법으로 주름 성형술을 시행하였다.

국내에서 김태윤 등[6]이 신경 이식편을 이용하여 횡격막 신경 재건술을 시행하였다. 신경 이식편을 이용한 재건술에서, 비복신경이 광범위하게 쓰이는 신경 이식편이다. 이식된 신경이 기능을 하려면 비교적 장시간이 소요된다. 이식편의 길이가 5~6 cm라면, 이식편을 통과하는데 2~3개월이 소요되고, 해당 기관에 추가적인 신경지배가 이뤄지는데 6~15개월이 걸린다. 최대의 결과는 3년이 소요되어야 나타난다고 하였다[7]. 따라서 횡격막 신경 재건술은 단기간 동안 지속된 편측 횡격막 마비에서 사용될 수 있는 술식으로, 제한적인 경우에서 적응증이 된다.

Higgs 등[8]은 편측 횡격막 마비가 발생한 19명의 환자에서 편측 횡격막 주름 성형술을 시행하고 7~14년 추적 관찰한 장기적인 결과를 발표하였다. 체워 변화에 따른 폐 용적은 변하지 않았으며, FVC, FEV1, FRC와 TLC (total lung capacity)가 모두 유의하게 개선되었다. 호흡곤란 정도는 3예를 제외하고는 호전되어, 횡격막 주름 성형술이 장기적으로도 효과적이라고 하였다.

Takeda 등[9]은 9마리의 개를 이용하여 양측 횡격막 신경을 절제 후 및 양측 횡격막 주름성형술 후 호흡을 연구하였다. 횡격막 주름성형술 전후로 일회호흡량(tidal volume)이 통계적으로 유의하게 증가하였으나, 횡격막 신경 절제

이전에 비해서는 통계적으로 유의하게 줄어들었다. 호흡 수는 횡격막 신경 절제 이후가 절제 전에 비하여 56% 의미 있게 증가하였으나, 횡격막 주름성형술 이후에는 횡격막 신경 절제 이전으로 회복되었다. 횡격막 신경 절제 이전에 비하여 횡격막 신경 절제 이후에 동적인 폐 순응도 (dynamic lung compliance)는 감소하였고, 호흡일(work of breathing)은 증가하였다. 그러나 횡격막 주름 성형술 이후에 통계적으로 의미 있게 호전되지는 않았다. 따라서 양측성 횡격막마비에서 주름성형술은 횡격막 기능, 폐 순응도, 호흡일을 호전시키지 않는다고 하였다. 본 증례에서 수술 전 횡격막 신경마비가 없었던 시기에 시행한 폐기능 검사에서 폐쇄성 환기 장애가 있었고, 양측성 횡격막 마비가 발생하여 횡격막 주름성형술 후 시행한 폐기능 검사에서는 폐쇄성 및 제한성 환기 장애가 동반되었다(Fig. 4). 이는 횡격막 신경 마비로 인해 폐 순응도가 감소하였고, 횡격막 주름성형술 이후에도 폐 순응도가 개선되지 않아 제한성 환기 장애가 동반된 것으로, 실험과 유사한 결과를 나타낸 것이다. 횡격막 주름성형술 후 일회호흡량을 증가시키는 가능한 기전으로 양측의 횡격막을 고정함으로써 늑골 근육이 일회호흡량을 만들어내는 효율을 높이는 것이라고 하였다. 유아에서는 늑골 근육이 약하고, 따라서 횡격막 마비가 발생한 유아에서는 횡격막 주름성형술이 그다지 효과적이지 않은 임상 경험이 이 기전을 뒷받침한다고 하였다.

Stolk 등[3]이 신경통근위축증(neuralgic amyotrophy)에 의한 양측 횡격막 마비가 발생한 6명의 환자를 보고하였다. 이들은 모두 호흡곤란으로 누울 수 없는 환자였다. 양측 횡격막 주름성형술을 시행한 3명과 수술을 시행하지 않은 3명의 두 군으로 비교하여 분석하였다. 수술을 시행한 3예 모두에서 수술 직후 발관(extubation)하였으며, 술 후 2일 안에 누운 자세가 가능하였다. 누운 자세에서 FVC 가 정상 예측치의 51%에서 68%로 통계적으로 의미 있게 증가하였다. 동맥혈 가스분석도 혈중 산소 분압이 59.2 mmHg에서 93.4 mmHg로 통계적으로 의미 있게 증가하였다. 그러나 최대 구강 흡기압(maximal inspiratory mouth pressure: MIPm)은 변화가 없었다. 이것으로 양측 횡격막 주름성형술이 호흡근의 근력에 의미 있는 변화를 가져오는 것은 아니라고 하였다. 양측 횡격막 주름성형술 후 FVC가 증가한 것은, 상부 늑골우리(rib cage)와 흉골유돌근(sternomastoid) 및 등세모근(trapezius)의 적응 기전에 도움을 주었기 때문일 것이라 하였다. 결론적으로 성인에서 발생한 양측성 횡격막 신경 마비는, 횡격막 주름성형술이

폐기능과 가스교환을 호전시키며, 환자의 정상적인 일상 생활로의 복귀를 가능하게 한다고 하였다.

치료 방법과 수술시기의 결정은 아직까지 논란이 있다. 횡격막 마비가 진단되면 가능한 빨리 주름 성형술을 시행해야 한다는 주장도 있으나 대부분의 보고에서 횡격막 신경기능의 자발적인 회복이 일어날 수 있는 2~3주간은 주름 성형술을 유보하는 것이 좋다고 주장하고 있다. 그러나 Leeuw 등[2]은 2~3주간의 기간동안 횡격막 마비의 회복이 일어나는 비율이 매우 낮으므로 환자의 호흡기능의 상태에 따라 주름 성형술 시행의 시기는 결정되어야 한다고 하였다.

저자들은 흉선암 수술 후 발생한 양측성 횡격막 마비로 인해 인공호흡기 일탈 곤란이 발생한 환자에서, 양측 횡격막 주름 성형술을 시행하여 만족할 만한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

참 고 문 헌

- Graham DR, Kaplan D, Evans CC, Hind CR, Donnelly RJ. *Diaphragmatic plication for unilateral diaphragmatic paralysis: a 10-year experience*. Ann Thorac Surg 1990;49: 248-51.
- Leeuw MD, Williams JM, Freedom RM, Williams WG, Shemie SD, McCrindle BW. *Impact of diaphragmatic paralysis after cardiothoracic surgery in children*. J Thorac Cardiovasc Surg 1999;118:510-7.
- Stolk J, Versteegh MIM. *Long-term effect of bilateral plication of the diaphragm*. Chest 2000;117:786-9.
- Binham JAW. *Two cases of unilateral paralysis of the diaphragm in the newborn treated surgically*. Thorax 1954; 9:248-52.
- Mouroux J, Padovani B, Poirier NC, et al. *Technic for the repair of diaphragmatic eventration*. Ann Thorac Surg 1996; 62:905-7.
- Kim TY, Hong KW, Kim KI, Lee WJ, Choi KM. *Phrenic nerve reconstruction during anterior mediastinal tumor resection*. Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2002;35:560-3.
- Kim ED, Scardino PT, Kadmon D, Slawin K, Nath RK. *Interposition osural nerve grafting during radical retro-pubic prostatectomy*. Urology 2001;57(2):211-6.
- Higgs SM, Hussain A, Jackson M, Donnelly RJ, Berrisford RG. *Long term results of diaphragmatic plication for unilateral diaphragm paralysis*. Eur J Cardiothorac Surg 2002;21:294-7.
- Takeda SI, Nakahara K, Fujii Y, Matsumura A, Minami M, Matsuda H. *Effects of diaphragmatic plication on respiratory mechanics in dogs with unilateral and bilateral phrenic nerve paralyses*. Chest 1995;107:798-804.

=국문 초록=

양측성 횡격막 마비는 드문 질환으로 외상, 심흉부 수술, 신경근육질병, 경부척추굽음증, 감염이 원인이 될 수 있다. 우폐상엽, 심낭, 상대정맥과 무명정맥을 침범한 흉선암의 적출술을 시행한 후 60세 남자 환자에서 양측성 횡격막 마비가 발생하였다. 심한 호흡곤란이 발생하였고, 인공호흡기 이탈이 불가능하였다. 양측 횡격막 주름성형술을 시행하였고, 인공호흡기 이탈 및 누운 자세에서 수면이 가능하게 되어 만족할 만한 결과를 얻었기에 문헌 보고하는 바이다.

- 중심 단어 : 1. 횡격막
2. 횡격막 병변
3. 흉선종양