

외상에 의해 발생한 체동맥-폐혈관루

— 1예 보고 —

김건우* · 이재익* · 김정호** · 최수진** · 박국양* · 박철현*

Traumatic Systemic Artery to Pulmonary Vessel Fistula

— A case report —

Keun-Woo Kim, M.D.*, Jae-Ik Lee, M.D.*, Jeong Ho Kim, M.D.**,
Soo-Jin Choi, M.D.**, Kook Yang Park, M.D.*, Chul-Hyun Park, M.D.*

Systemic artery to pulmonary vessel fistula (SAPVF) is an abnormal communication between the systemic arterial circulation and the pulmonary circulation. Most SAPVF are congenital, but some SAPVF may also develop as a consequence of trauma, neoplasm, and inflammation of pleura or lung parenchyma. A 38-year-old man was referred to our department for hemoptysis. He underwent an operation for traumatic diaphragm rupture 16 years ago. Chest CT scan and angiography revealed SAPVF between several intercostal arteries and pulmonary vessels. He had an angiographic transcatheter embolization and the SAPVF disappeared at follow-up chest CT. To the best of our knowledge, this is the first case report of traumatic SAPVF in Korea.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2007;40:74-78)

Key words: 1. Fistula
2. Embolization, therapeutic
3. Traumatic systemic artery to pulmonary vessel fist

증 례

38세 남자 환자가 객혈을 주소로 내원하였다. 스쿠버 다이버가 직업인 환자는 내원 2주 전 잠수한 후 급히 수면으로 올라오다 1차례 객혈을 경험하였다. 환자는 내원 16년 전 교통사고로 인한 우측 횡격막 파열로 수술한 과거력이 있으나, 당시 수술 기록상 횡격막 병변 외 특이사항은 없었다. 또한 결핵, 폐렴, 기흉 등 흉부 질환의 과거력은 없었다. 신체 검진상 활력 징후는 정상이었고, 청색증, 곤봉지, 피부 모세혈관 확장 등은 없었으나 우측 폐허부 청진 시 혈류

잡음이 들렸다. 그 외 혈액 검사, 생화학 검사 및 요 검사 소견은 모두 정상 범위였고, 단순 흉부촬영에서 우측 횡격막이 올라간 것 외에 비정상 소견은 없었다(Fig. 1). 흉부 컴퓨터 단층 촬영에서 우측 늑간 동맥과 내흉 동맥이 구불구불(tortuous)하고 확장되어 있었으며, 폐동맥 혹은 폐정맥과 연결되어 다양한 크기의 종괴를 형성하고 있었다(Fig. 2). 확진을 위해 시행한 폐동맥 혈관 조영술에서 폐동정맥기형(pulmonary arteriovenous malformation)은 관찰되지 않았으며, 우측 폐허부로 가는 폐동맥의 혈류가 말초까지 가지 않고 감소되는 양상을 보여, 폐동정맥기형을 배제할 수 있

*가천의과대학교 길병원 흉부외과
Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, Gachon University Gil Medical Center
**가천의과대학교 길병원 영상의학과
Department of Radiology, Gachon University Gil Medical Center
논문접수일 : 2006년 9월 7일, 심사통과일 : 2006년 9월 18일
책임저자 : 이재익 (405-220) 인천광역시 남동구 구월동 1198, 가천의과대학교 길병원 흉부외과
(Tel) 032-460-3645, (Fax) 032-460-3117, E-mail: pittz@hanmail.net
본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

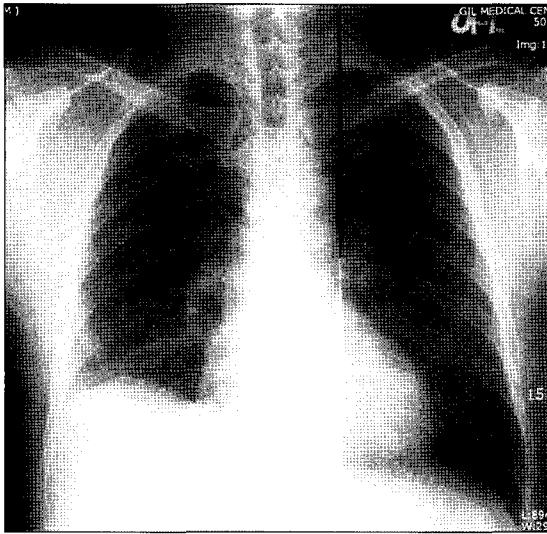


Fig. 1. Chest X-ray showed elevated right diaphragm.

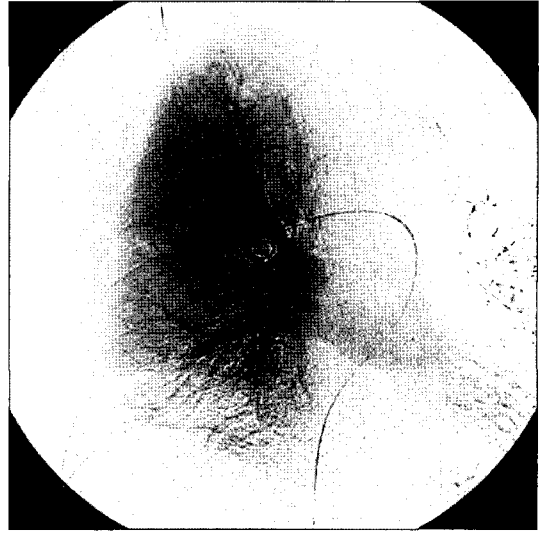


Fig. 3. Right pulmonary artery angiography showed decreased arterial blood flow at lower lung field and no pulmonary arteriovenous malformation.

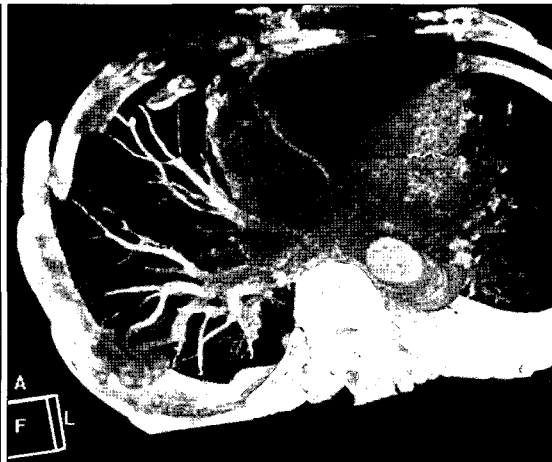
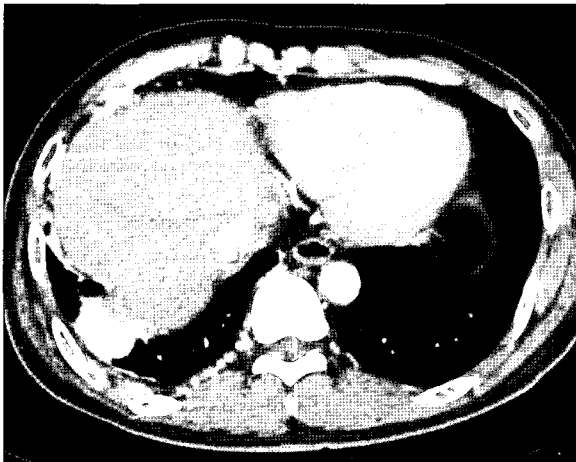


Fig. 2. Chest CT showed multiple mass, which were connected with tortuous, dilated intercostal arteries, internal mammary artery and pulmonary vessels, in the subpleural area of right middle lobe and right lower lobe.

었다(Fig. 3). 체동맥 혈관 조영술 결과 우측 7, 8, 9, 10번 늑간 동맥 및 우측 내흉 동맥 등이 확장되어 있고 구불구 불하며 혈류가 폐정맥으로 배액되고 있었다(Fig. 4). 이로써 우측 늑간 동맥 및 내흉 동맥과 폐혈관 사이에 발생한 체 동맥-폐혈관루(systemic artery to pulmonary vessel fistula, SAPVF)를 확인하였고, 환자의 병력을 고려하여 외상성 SAPVF로 진단할 수 있었다. 이어서 우측 7, 8, 9, 10번 늑 간 동맥과 내흉 동맥에 젤폼과 코일을 이용하여 색전술을 시행하였다. 색전술 후 SAPVF를 통한 혈류가 의미 있게 감소하였고, 우측 폐동맥 혈관 조영술에서도 시술 전과는 달

리 말초까지 관류가 잘 되었다(Fig. 5). 환자는 시술 후 우 측 흉통을 며칠간 호소하였으나 점차 호전되었고, 특별한 합병증 없이 퇴원하였다. 환자의 이민 관계로 현재까지 단 기 추적만 가능하였고, 시술 2주 후에 시행한 흉부 컴퓨터 단층 촬영에서 재발이나 남아있는 SAPVF가 없음을 확인하 였다(Fig. 6).

고 찰

SAPVF란 기관지 동맥을 제외한 체동맥과 폐동맥 혹은 폐

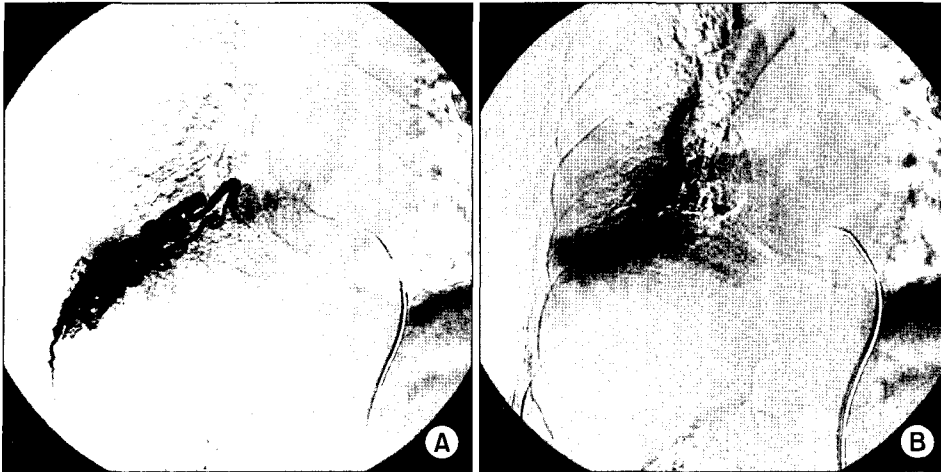


Fig. 4. Selective intercostal arteriography showed tortuous blood flow (A), which eventually drained to the pulmonary vein (B), through the intercostal artery.

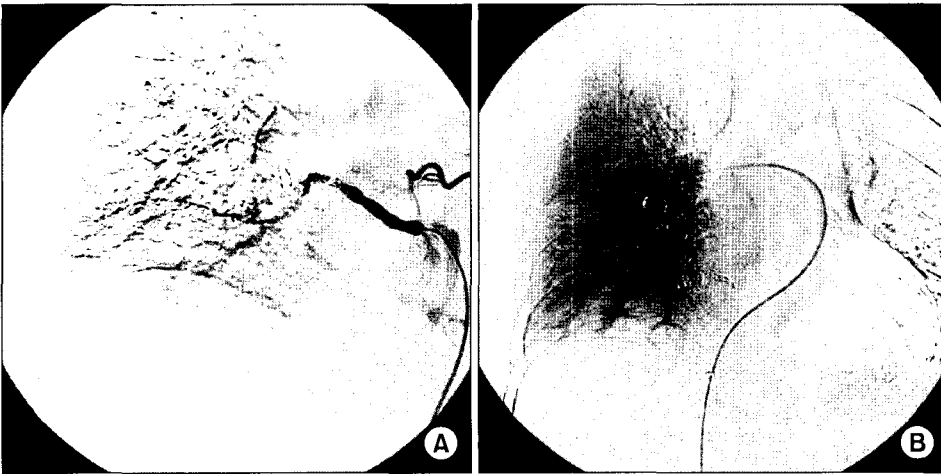


Fig. 5. Immediately after the transcatheter embolization, blood flow to the lung through the intercostal artery diminished (A), and pulmonary angiography showed normalized peripheral perfusion (B).

정맥 사이의 비정상적인 연결을 말한다. 이 질환은 1947년 Burchell과 Clagett이 최초로 보고한 후[1], 문헌상 약 30에 정도가 보고되었을 정도로 매우 드물며, 국내에서는 허재학 등 [2]에 의해 선천성 SAPVF가 1예 보고되었을 뿐이다.

SAPVF는 50%정도가 선천성이고 나머지는 악성 종양이나 결핵, 폐렴, 폐 농양 등의 감염성 질환, 타카야수 동맥염과 같은 염증성 질환, 흉부 외상 등으로 인해 발생한다 [3]. 발병 기전을 살펴보면 어떤 이유로든 흉막과 종격동에 염증 반응이 진행되고 이러한 염증 반응이 유착을 유발하거나 체동맥의 혈류를 차단함으로써 부행 혈관(collateral vessel)이 발달하게 된다. 이러한 부행 혈관들이 폐 실질을 뚫고 폐동맥이나 폐정맥과 연결됨으로써 SAPVF가 발생한다. 주로 내흉 동맥과 늑간 동맥에서 잘 생기고, 그 외에 쇄골 아래 동맥, 겨드랑이 동맥, 횡경막 동맥, 관상 동맥에서 생기기도 한다[4,5]. 본 증례의 경우 내원 16년

진 횡격막 파열로 수술할 당시의 수술 소견에서 특별한 언급이 없었던 것으로 보아 선천성 SAPVF는 배제할 수 있고, 그 외 종양이나 염증성 질환의 과거력이 없으므로 외상에 의해 발생한 SAPVF로 보는 것이 타당하다고 생각한다. 외상성 SAPVF에 관한 보고들 중에는 흉부 둔상이나 관통상 외에도, 폐 절제술, 흉관 삽입술, 겨드랑이 농양 배액술, 탈크를 이용한 흉막 유착술, 부분 흉막 절제술 등과 같이 의인성으로 발생한 경우들도 있었다[6]. 본 증례의 경우 SAPVF가 횡격막 파열로 인한 것인지 수술에 의한 것인지 명확하지 않으나, 다양한 위치에 다수의 SAPVF가 발생한 것으로 보아 흉부 둔상에 의한 것일 가능성이 높다.

SAPVF에 의해 호흡곤란, 심부전, 객혈 등이 나타날 수 있지만, 대부분 증상이 없어서 우연히 신체 검진에서 발견되는 경우가 많다. 단순 흉부 방사선 촬영에서 폐혈관 음영이 증가되어 있거나 폐침윤이 보일 수 있으며, 늑간

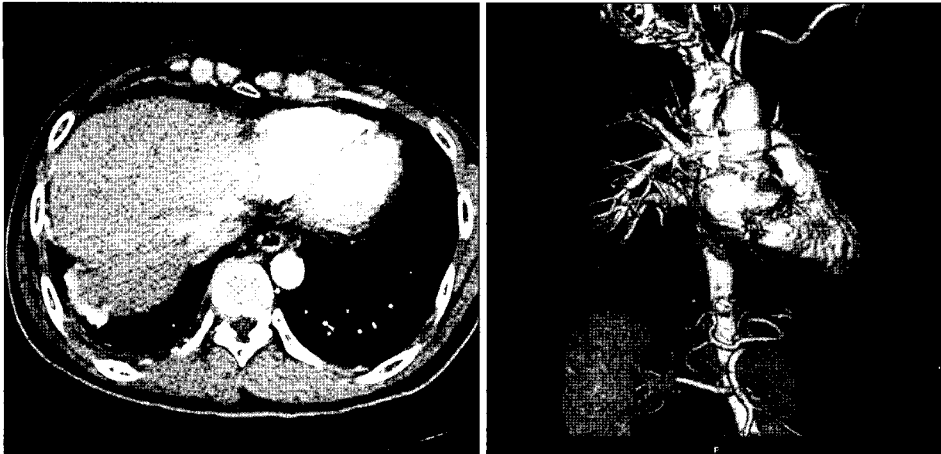


Fig. 6. The mass and tortuous intercostal arteries disappeared at follow-up chest CT.

동맥에서 생긴 경우 늑골 패임(rib notch)이 나타날 수 있다. 흉부 컴퓨터 단층 촬영도 유용한 진단 방법이기도 하나, 정확한 해부학적 연결 구조를 파악하거나, 특히 색전술을 계획한다면 혈관 조영술이 더 나은 방법이라 할 수 있다. 현재까지 SAPVF의 자연 경과에 잘 알려져 있지 않으나, 장기간 치료를 하지 않았을 때에는 객혈, 심부전, 폐동맥 고혈압, 심내막염, 괴혈 등의 합병증이 생길 수 있다[3,5].

SAPVF가 작거나 증상이 없는 경우에는 경과 관찰을 하기도 하지만, 대개의 경우 적절한 치료가 필요하다. 치료 방법에는 혈관 색전술과 수술이 있다. 혈관 색전술은 SAPVF를 구성하는 구심성 체동맥(afferent systemic artery)에 코일을 삽입함으로써, 혈관 내피(endothelium)를 자극하고 혈전 형성을 유도해 혈관을 폐색시키는 방법이다. SAPVF가 양측에서 다수 관찰되거나 수술에 부적합한 환자 상태, 대량의 객혈 시 좋은 치료방법이 될 수 있지만, 표적 동맥이 아닌 다른 동맥을 폐색시키거나, 코일 색전증을 일으킬 수 있으며, 구심성 체동맥을 모두 막지 않을 경우 SAPVF가 재발할 수 있다는 단점이 있다. 수술에는 구심성 체동맥을 결찰하는 방법과 폐실질과의 유착을 박리하는 방법, 그리고 SAPVF를 직접 절제하는 방법 등이 있다. 때로는 수술 시 예상되는 대량 출혈 등을 고려하여 술 전에 색전술을 시행한 후 SAPVF를 제거한 보고도 있다[7]. 수술적 절제의 경우 완전 절제가 가능하다면 색전술보다 수술 성적이 좋으나 항상 가능한 것은 아니며, 구심성 체동맥의 수가 적고 수술 위험도가 낮은 환자에서 재발성 객혈이 있을 때 좋은 치료법이 될 수 있다[3,5]. 현재까지 보고된 증례가 많지 않고, 그 추적 기간도 짧아 어느 것이 안전하고 효과적인 치료 방법인지 단정짓기는 어려우며, 환자별로 적절한 치료법을 선택해야 한다.

본 증례의 경우 다수의 SAPVF가 있으며, 재수술로 인한 유착과 많은 부행 혈관들로 인한 대량 출혈 등의 합병증을 고려하여 혈관 색전술을 시행하였으며, 좋은 단기 결과를 얻었다. 그러나 전술한 바와 같이 색전술의 장기 성적이 알려져 있지 않아, 재발 혹은 만기 합병증에 대한 추적이 필요하다고 생각한다.

참 고 문 헌

1. Burchell HB, Clagett OT. *The clinical syndrome associated with pulmonary arteriovenous fistula, including a case report of a surgical cure.* Am Heart J 1947;34:151.
2. Heo JH, Kim YT, Sung SW, Kim JH. *Systemic pulmonary arteriovenous fistula.* Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1998; 31:409-12.
3. Shovlin CL, Jackson JE, Hughes MB. *Pulmonary arteriovenous malformations and other pulmonary vascular abnormalities.* In: Murray JF, Nadel JA. *Murray & Nadel's textbook of respiratory medicine.* 4th ed. Philadelphia: W.B Saunders company. 2005;1480-91.
4. Jeanfaivre T, Regnard O, L'Hoste P, Enon B. *Chronic pain of vascular origin caused by a parietopulmonary fistula of the thoracic wall.* Ann Thorac Surg 1997;63:839-41.
5. Riehl G, Chaffanjon P, Frey G, Sessa C, Brichon P. *Post-operative systemic artery to pulmonary vessel fistula: analysis of three cases.* Ann Thorac Surg 2003;76:1873-7.
6. Cox PA, Keshishian JM, Blades BB. *Traumatic arteriovenous fistula of the chest wall and lung secondary to insertion of an intercostal catheter.* J Thorac Cardiovasc Surg 1967;54: 109-12.
7. Sivrikoz MC, Tuncozgun B, Kervancioglu S, Elbeyli L. *Huge arteriovenous malformation due to chronic infection.* Interact Cardiovasc Thorac Surg 2004;3:257-9.

=국문 초록=

체동맥-폐혈관루(systemic artery to pulmonary vessel fistula, SAPVF)는 비정상적으로 형성된 체동맥과 폐혈관 사이의 연결이다. 이는 대부분 선천적으로 발생하지만, 드물게는 폐나 흉막의 종양, 염증성 질환 및 외상 등으로 인해 발생할 수 있다. 내원 16년 전 교통사고로 인한 횡경막 파열로 수술한 과거력이 있는 38세 남자 환자가 객혈을 주소로 내원하였고, 흉부 컴퓨터 단층 촬영과 혈관 조영술로 늑간 동맥 및 내흉 동맥과 폐혈관이 연결된 SAPVF를 진단하였다. 저자들은 외상에 의한 SAPVF 1예를 경험하였고, 혈관 색전술을 시행하여 좋은 결과를 얻었기에 국내 문헌상으로는 최초로 이를 보고하는 바이다.

- 중심 단어 : 1. 누공
2. 색전술
3. 외상성 체동맥-폐혈관루