

□ 이달의 X-선 □

## 좌위동맥으로부터 공급받는 폐격리증 1예

한일병원 내과

강지향, 이공섭, 이창선, 최현주, 홍종서, 고영민, 이재용, 이은천\*

= Abstract =

### A Case of Pulmonary Sequestration Supplied with Left Gastric Artery

Ji Hyang Kang, M.D., Goung Sup Lee, M.D., Chang Seon Lee, M.D.,  
Hyun Ju Choi, M.D., Jong Seo Hong, M.D., Young Min Koh, M.D.,  
Jai Yung Lee, M.D., Eon Chun Lee, M.D.\*

*Department of Internal Medicine, and Radiology\*, Hanil General Hospital, Seoul, Korea*

The bronchopulmonary sequestration is a region of the lung parenchyma that has an incomplete or no connection with the airways and is supplied by an aberrant artery arising from the aorta or one of its branches. The anatomy of the supplying artery is very important during operation.

A case of pulmonary sequestration supplied with the left gastric artery is presented.

The patient was 61 years old male and had hemoptysis. The chest CT showed cystic bronchiectasis in the left lower lung with few air-fluid level. Also, in aortogram, arterial supply was The aortogram also showed arterial supply coming from the left gastric artery of abdominal aorta branches. Left lower lobectomy and abnormal arterial ligation were performed. (*Tuberculosis and Respiratory Diseases* 2000, 48 : 550-554)

---

Key words : Pulmonary sequestration, Left gastric artery.

Address for correspondence :

Young Min Koh, M.D.

Department of Internal Medicine, Hanil General Hospital, Seoul, Korea

388-1, Ssang Mun Dong, Dobong-Ku, Seoul, Korea

Phone : 82-2-901-3007 Fax : 82-2-901-3328 E-mail : ymkoh@unitel.co.kr

## 서 론

폐격리증은 정상기관지와 교통하지 않는 비정상적으로 발생한 폐조직과 이상동맥에 의해 형성된 비교적 드문 선천성 질환이며, 국내에서도 몇 예가 보고되었다. 폐격리증에서 이상동맥은 주로 흉부대동맥에서 기시되며, 그 위치는 수술합병증의 발생에 중요하다.

저자들은 61세 객혈로 내원한 남자환자에서 좌위동맥에서 기시하는 이상동맥에 의해 공급받는 폐격리증 1예를 경험하였기에 보고하고자 한다.

## 증 례

환 자: 유○○, 61세, 남자

주 소: 2일전부터 시작된 객혈(양은 하루 50-100ml, 선명한 적색, 3-4회/일)

현병력: 상기 환자는 10년전부터 빈번한 상기도 감염과 간헐적인 소량의 객혈이 있었으나, 특별한 치료없이 지내다가, 최근 기침과 함께 2일전부터 시작된 객혈의 양이 점차 증가하여 본원 응급실을 통해 입원하였다.

과거력 및 가족력: 10년전 기관지확장증으로 진단받았으나 치료없이 지내왔으며 홍역, 백일해 및 결핵의 병력은 없었다. 그 외 10년전부터 B형 간염보균자로 지냈으며, 당뇨, 고혈압의 병력은 없었다.

가족력상 특이사항 없었다.

사회력 및 직업력: 공무원이었으며 비흡연자였다.

이학적 소견: 내원당시 환자의 혈압 110/70 mmHg, 체온 36.5℃, 맥박수 88회/분, 호흡수 20회/분이었다. 전신상태는 양호했으며, 경부에 종괴는 촉진되지 않았다. 흉부청진상 양측 하엽에서 흡기시 수포음이 청진되었고 심잡음은 청진되지 않았다. 복부소견상, 간, 비장은 촉진되지 않았으며 말단수지상 청색증이나 곤봉지의 변화는 없었다.

검사실 소견: 일반 혈액검사, 신 및 간기능의 혈청검사는 정상이었다. 객담의 결핵도말검사, 일반 미생물 배양검사, 세포학적검사는 모두 음성이었다.

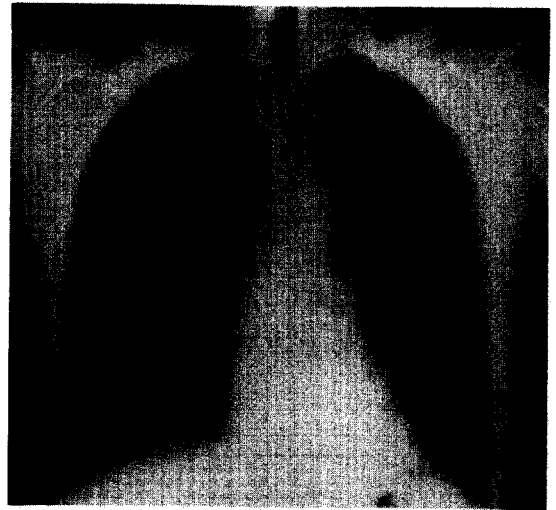


Fig. 1. Chest PA shows bronchiectatic changes in both lower lobe, especially left.

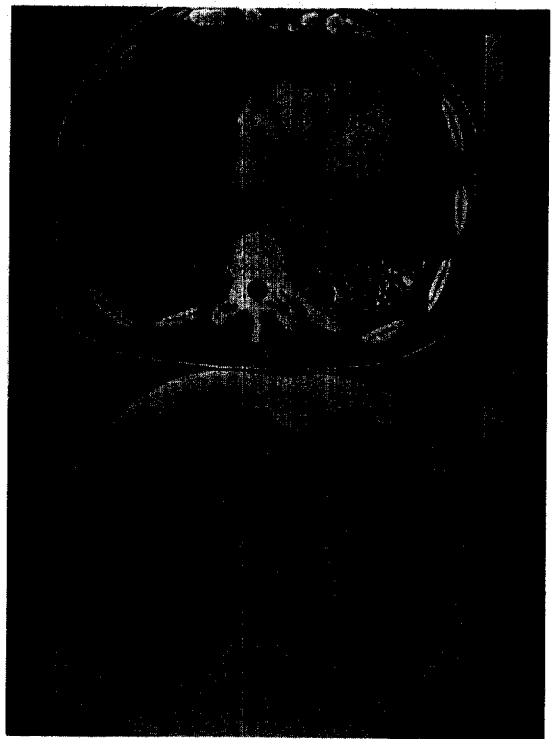


Fig. 2. Chest CT scan reveals multiple cystic bronchiectasis with a few internal air-fluid level in left lower lobe.

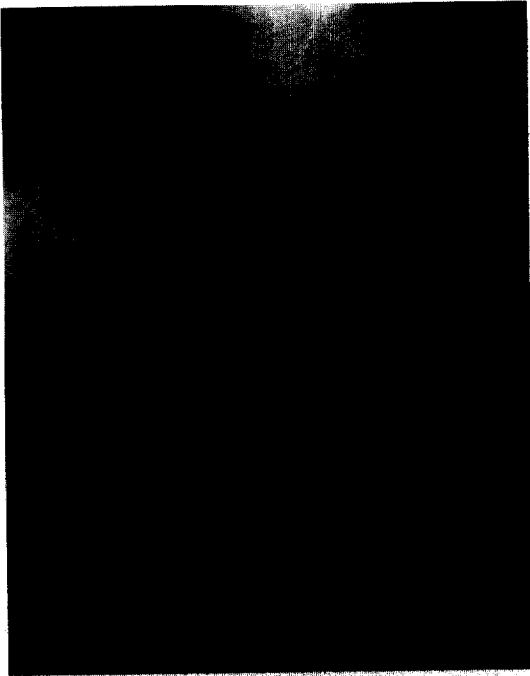


Fig. 3. Thoracic aortogram shows that abnormal feeding artery to left lower lobe is emerged at the left gastric artery. The artery emerging from the left gastric artery abnormally feeding the left lower lobe.

방사선학적 소견 : 단순 흉부 X-선사진에서 양측하엽의 기관지 음영이 증가되어 있었고, 특히 좌하엽에는 다발성 낭종의 변화를 동반하고 있었다(Fig. 1). 고해상 흉부 전산화단층촬영사진에서 우측하엽에는 경미한 기관지 확장과 염증소견이 보였으나, 좌측하엽에는 좌측상엽과 구별되는 국소적인 다발성 낭종성 변화와 낭종 내부에 다수의 공기음영이 관찰되었다(Fig. 2). 기관지내시경 소견 : 좌하엽의 후기저분절에서 스며나오는 출혈이 보이고 파괴된 점막이 관찰되었다.

이상의 소견으로 기관지확장증 또는 폐격리증이 의심되었다. 이후 시행한 대동맥촬영술상 좌위동맥(Left gastric artery)에서 분지하는 이상동맥이 좌하엽으로 나가는 것이 관찰되어(Fig. 3) 폐격리증으로 진단하고 흉부외과로 전과하였다.

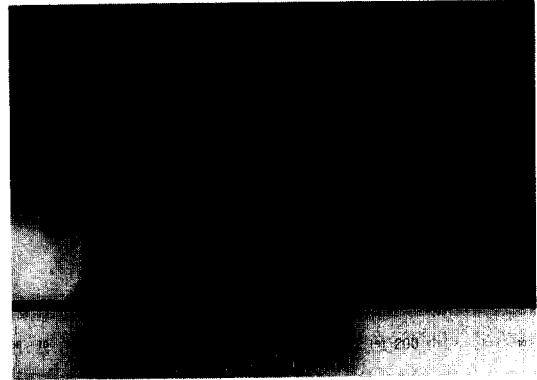


Fig. 4. Gross finding of resected left lower lobe shows multiple cystic changes containing a dark blood clot.

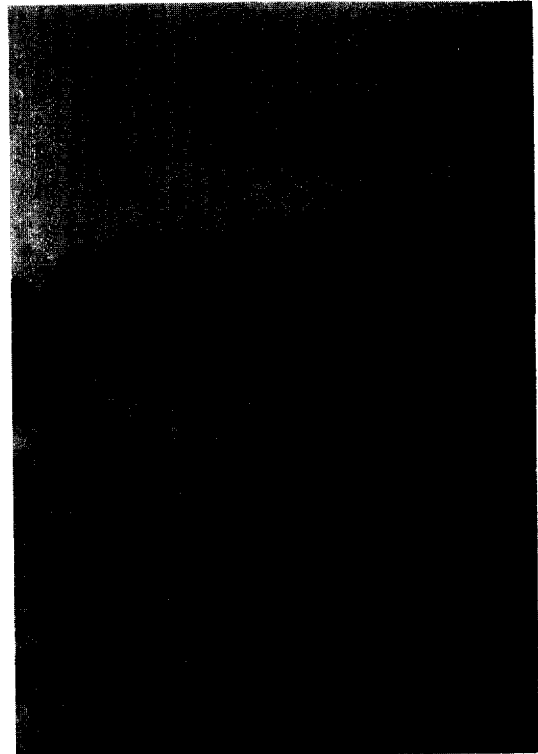


Fig. 5. Microscopic picture of the sequestration showing dilated bronchiolar structures among fibrous background. The interstitium infiltrated by lymphocytes and lymphoid follicles are noted. H-E stain,  $\times 100$ .

수술 및 경과 : 내엽형 폐격리증이었으며 동맥은 좌위 동맥에서 공급되었다. 폐격리증으로 공급되는 비비꼬인 이상동맥인 좌위동맥을 횡격막 수준에서 결찰하고 좌하엽절제술을 시행하였다.

현재 외래 추적관찰중이며 객혈없이 건강하게 지내고 있다.

조직학적 소견 : 육안적으로 절제된 좌하엽의 크기는  $11 \times 7 \times 9\text{cm}$ 으로, 단면상 말단부위에 벌집모양의 공동을 형성하였다. 이 말단부의 공동성 병변의 직경은 6cm으로 측정되었다(Fig. 4).

현미경적으로 후기저부와 내기저부 구역은 무수한 낭종성 구조를 함유하며, 세기관지들의 확장과 섬유화 이외에 염증세포의 침윤이 있었다. 낭종은 원주상피로 덮혀있었고, 내부에는 점액성 분비물과 염증성 삼출물로 충만되어 있었다(Fig. 5).

## 고 찰

폐격리증은 선천성 질환으로 1947년 Pryce<sup>1</sup>가 sequestration으로 처음 명명한 이후 많은 보고가 있다. 이는 비정상적으로 격리된 폐조직과 이 폐조직에 혈액을 공급하는 이상동맥이 존재하는 선천성 기형으로 신생기형의 약 0.15-6.4%를 차지한다<sup>2</sup>. 국내에서도 1970년대 초에 내엽형 폐격리증의 수술례를 처음 보고한 바 있으며<sup>3</sup>, 이후 몇몇 증례를 정리한 보고가 있었다<sup>4</sup>.

폐격리증에서 이상동맥의 기시부위는 출혈동의 수술 합병증 발생에 매우 중요한 요소이므로, 반드시 수술전 대동맥조영술을 이용한 정확한 위치의 확인이 필요하다. 외국의 경우, Carter<sup>5</sup>가 보고한 233례의 폐격리증 환자들에서는 내엽형인 경우는 90%가 횡격막 위쪽의 체동맥에서 이상동맥이 기시하였다. 그러나 국내의 보고에서는 이상동맥의 64%만이 흉부대동맥에서 기시되었고, 그 외에 복부대동맥, 늑간동맥, 대동맥궁, 무명동맥 등으로 기시 부위가 다양하였다<sup>4</sup>. 그러나 현재까지 본 증례처럼 복부 대동맥의 분지인 좌위동맥에서 기시되어 수차례 꼬인 형태를 보이는 이상

동맥에 대한 보고는 없었다.

폐격리증과 이상동맥의 발생기전은 다음과 같다. 정상적인 폐는 중장에서 폐분아가 발생하여 형성된다. 그러나 폐격리증은 원초적 전장에서 부수적인 폐분아(이하 부폐아라 명명함)가 발생하여 중장에서 생긴 정상 폐분아의 미부로 이동하고, 이후 성장하면서 정상폐와 융합되어 생긴다. 정상적으로 전장은 위나 식도를 형성하게 되며, 부폐아와 연결되어 있던 부위는 발생과정 중 퇴화되지만, 일부에서는 이 연결부위가 지속되어 부폐아에서 발생한 폐격리증의 일부가 복부 대동맥 또는 그 분지로부터 이상동맥의 공급을 받게 된다<sup>6-8</sup>.

또 폐격리증은 부폐아의 발생시기에 따라 내엽형과 외엽형으로 나뉘어진다. 내엽형은 부폐아의 발생이 흉막이 형성되기 이전에 발생하여 정상 폐조직과 함께 흉막안에서 발달하고, 외엽형은 부폐아가 흉막형성이 후에 발생하여 고유의 흉막을 따로 갖는다. 내엽형은 정상폐와 융합하는 경향을 띄며 폐하엽의 내기저부 또는 후기저부에 위치하고 동맥공급은 대동맥에서 받으며 정맥환류는 폐정맥을 통해 기정맥 또는 반기정맥등으로 환류된다. 이러한 기전에 의해 체동맥에서 기시된 이상동맥이 격리폐에 분포되었다가 폐절제술시 비정상적인 동맥출혈로 사망하는 원인이 되기도 한다. 본 증례의 경우에도 좌위동맥에서 비비꼬인 형태의 이상동맥이 격리폐에 공급되는 형태이므로 수술시 주의가 필요하였다.

폐격리증의 임상증상은 다양하게 나타날 수 있는데, 재발성의 발열, 기침, 객담 등의 호흡기 증상이 가장 흔하며, 이는 기관지와의 교통이 많은 내엽형에서 주로 나타난다. 그 외 대량 객혈, 자발성 혈흉, 긴장성 기흉의 발생도 보고되어 있다<sup>9</sup>. 또 Savic 등은 무증상으로 지내다가 단순 흉부 X-선사진에서 우연히 발견된 경우도 15.5%임을 보고하였다<sup>10</sup>.

진단은 우선 단순 흉부 X-선사진이 도움이 되는데, Ferguson<sup>11</sup>에 의하면 외엽형의 경우는 폐문을 예각으로 하는 균일한 음영의 삼각형 모양이 특징이며, Savic 등<sup>10</sup>에 의하면 내엽형의 경우는 낭포성 병변의

소견이 약 50%에서 나타나고, 수면상 음영(26%) 및 균일 음영등이 나타날 수 있다고 보고하였다. 본 증례에서도 내엽형 폐격리증으로, 단순 흉부 X-선사진 및 고해상 흉부 전산화단층촬영사진에서 좌하엽의 낭포성 기관지확장과 수면상 음영을 보였다.

폐격리증의 감별진단으로는 낭포성 폐실질의 변화를 보이는 낭성 기관지확장증과 그 외 폐농양, 폐결핵, 폐종양, 폐의 선천성 선종양 기형을 포함한 악성 종양 등을 들 수 있다. 본 증례의 경우 비교적 고령으로 반복되는 기도 감염과 객담 및 객혈로 초기에는 낭성 기관지 확장증으로 의심하였으나 폐병변의 위치와 재발되는 객혈 때문에 폐격리증을 의심하였다.

폐격리증의 치료는 증상이 없는 경우에 관찰만 할 수도 있으나 반복되는 호흡기 감염 및 객혈 등의 증상이 있는 경우에는 폐엽 절제술이 가장 적절하다. 이런 폐격리증의 폐엽절제술에서 수술전에 이상동맥의 위치, 수, 직경등을 대동맥조영술로 확인하는 것은 이상동맥을 안전하게 분단결찰함에 중요하다<sup>12</sup>.

저자들은 객혈을 주소로 내원한 환자에서 단순 흉부 X-선사진상 국소적으로 다발성의 공동을 가진 폐병변을 보이고, 대동맥 조영술상 좌위동맥에서 기시되는 비비꼬인 형태의 이상동맥을 확인하여 폐격리증으로 진단하였다. 이후 폐엽절제술을 시행하여 내엽형 폐격리증으로 확진하였다. 본 증례와 같이 비록 고령일지라도 낭성 기관지확장증, 특히 좌하엽에 국한된 경우 일때는 폐격리증을 의심해 보아야 하며, 수술을 고려할 경우 반드시 수술전에 이상동맥의 위치를 확인해 주어야 할 것으로 사료되었다.

## 요 약

폐격리증은 비정상적으로 발생한 폐조직과 이상동맥에 의해 형성된 선천성 질환으로 비교적 드문질환이다. 폐격리증에서 이상동맥의 해부학적 위치는 수술합병증의 발생에 매우 중요하다. 저자들은 객혈을 주소로 내원한 61세 남자환자에서 대동맥촬영상 좌위동맥에서 기시하는 비비꼬인 형태의 이상동맥에 의해 공급

받는 폐격리증 1예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

## 참 고 문 헌

1. Pryce DM, Sellors TH, Blair LG. Intralobar sequestration of lung associated with an abnormal pulmonary artery. *Brit J Surg* 1947;35:18-29.
2. Sauvanet AA, Regnard JF, Calanducci F, Rojas-Miranda A, Darteville P. Pulmonary sequestration: Surgical aspects based on 61 cases. *Rev Pneumol Clin* 1991;47(3):126-32.
3. 양기민, 안궁환, 김용일. 내엽형 폐격리증 1예. 대한 흉부외과 학회지 1971;4:55-8.
4. 박광주, 김은숙, 장 존, 이원영, 김상준, 이두연 외 3명. 폐격리증 15예의 임상양상에 관한 고찰. 결핵 및 호흡기질환 1997;44:401-8.
5. Carter R. Pulmonary sequestration collective review. *Ann Thorac Surg* 1969;7:68-88.
6. Buntain WL, Wvolley MM, Mahour GH, Isaacs H, Payne V. Pulmonary sequestration in children. A twenty-five year experience. *Surgery* 1977;81:413-20.
7. Alfred PF, Jack AE, Jay AF, Michael AG, Larry RK. Pulmonary circulation. Alfred PF. Fishman's pulmonary disease and disorders. 3rd ed. New York: Donnelley & Sons;1997.p1256.
8. Gerle RD, Jaretzki A, Ashley CA, Berne AS. Congenital bronchpulmonary foregut malformation: Pulmonary sequestration communicating with gastrointestinal tract. *N Engl J Med* 1968;278:1413-9.
9. Frazier AA, Stocker JT. Intralobar sequestration: Radiologic-pathologic correlation. *Radiology* 1997;17:725-43.
10. Savic B, Birtel FJ, Tholen W, Funke HD, Knoche R. Lung sequestration: report of seven cases and review of 540 published cases. *Thorax* 1979;34: