

□ 증례 □

만성 기침을 주증상으로 한 선천성 기관지-식도루 1예

인하대학교 의과대학 내과, 흉부외과*

주명선 · 곽승민 · 조철호 · 신용운 · 김세환*

= Abstract =

Congenital Bronchoesophageal Fistula Causing Only Chronic Cough : One case

**Myung Sun Joo, M.D., Seung Min Kwak, M.D., Chul Ho Jo, M.D.,
Yong Woon Shin, M.D., Sae Whan Kim, M.D.***

Department of Internal Medicine and Thoracic Surgery Inha University Hospital*

There were so many causes of chronic coughing including postnasal drip, pneumonia, nasal polyp, asthma, interstitial lung disease etc. Congenital bronchoesophageal fistula was not usually thought as cause of chronic coughing. A 46-year-old female patient suffered from chronic coughing without usual causes. Her chest X-ray viewed normally. She coughed especially after swallowing foods. So we recommended her esophagogram and it revealed broncho-esophageal fistula. She underwent surgical resection of broncho-esophageal fistula. She was well without cough after the surgery. We reported a case of congenital broncho-esophageal fistula that had caused chronic coughing without any evidence of pneumonia, malignancy, tuberculosis, bronchiectasis, inflammation, asthma, nasal polyp, etc. So we should suspect the bronchoesophageal fistula when patients cough chronically with eating, and recommend the esophagogram.

Key Words : Congenital, bronchoesophageal fistula. chronic coughing.

서론

만성기침의 원인은 폐렴, 종양, 결핵, 천식 등 폐질환이외에도 비용종, 위식도 역류 등 다양한 원인이 있다²⁾. 만성기침의 원인을 찾기위한 많은

검사방법이 개발되었으며, 식도촬영술은 선천성 기관지 식도루 및 기도 식도루의 진단에는 필수적인 검사방법이지만 만성기침에 대한 검사로 흔히 사용되는 것은 아니다.

선천성 기관지-식도루(Congenital bronchoesophageal

fistula)는 1965년 Braimbridge³⁾가 23예를 보고하였고, 국내에서는 김등¹⁾이 처음으로 1979년에 보고한 매우 드문 질환이다. 이 선천성 기관지-식도루의 발생기전은 아직 정설이 없으나 Bekoe⁴⁾등은 후두기관고랑(laryngotracheal groove)이 완전봉합이 되지 않는 데서 오는 발생학적 기형으로 기술하고 있으며, 성인에서 발견되는 기관지-식도루는 H형(비폐쇄형 식도기형)이며 누관이 가늘고 또 누관의 기관지측 개구부가 주 기관지 이하인 경우가 대부분이다⁵⁾.

저자들은 다른 증상없이 만성기침만을 주소로 내원한 환자에서 발견된 선천성 기관지-식도루를 경험하였기에 문헌고찰과 아울러 증례를 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 정 OO 46세 여자

주 소: 유동식 연하후 발생하는 발작적 기침

병 력: 과거력상 특별한 질환을 앓은 적 없이 건강히 지냈고 흡연력은 없으며, 내원 3개월전부터 기침이 발생하였지만 별다른 치료를 받지 않았다. 최근에는 음식물을 삼킬 때 기침이 증가되었다.

진찰 소견: 환자의 전신상태는 양호하였고 신경학적 검사상 특이소견 보이지 않았으며, 입원 당시 체온은 36.5℃, 상지혈압 120/80 mmHg, 맥박수 80회/분, 호흡수 18회/분 등이었다. 환자의 흉부 청진상 심음과 호흡음은 정상이었으며, 다른 부위에서도 특이 소견은 보이지 않았다.

검사소견: 혈액검사상 WBC 8600/mm³, Hb 14.3 g/dl, Hct 41.2%로 나타났다. 흉부 단순 방사선촬영에서는 특이한 소견이 보이지 않았으며 (Fig. 1), 식도조영술에서 좌측 주기관지와 식도 사이에 기관지 식도루를 볼 수 있었다(Fig. 2).

기관지 내시경상에서는 용골(龍骨, Carina)에서 1cm 떨어진 좌측 주 기관지의 정중후방부에서

조그만 타원형의 함몰이 관찰되었으며 주위에 염증소견은 보이지 않았다(Fig. 3).

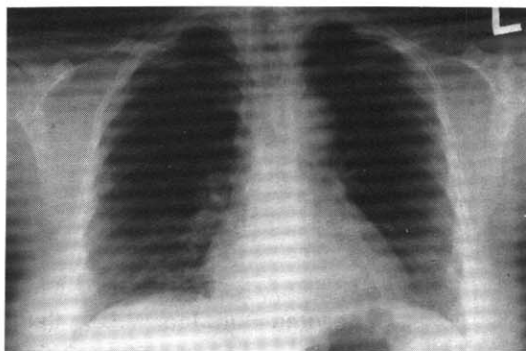


Fig. 1. Preoperative simple chest P-A showed no specific finding.

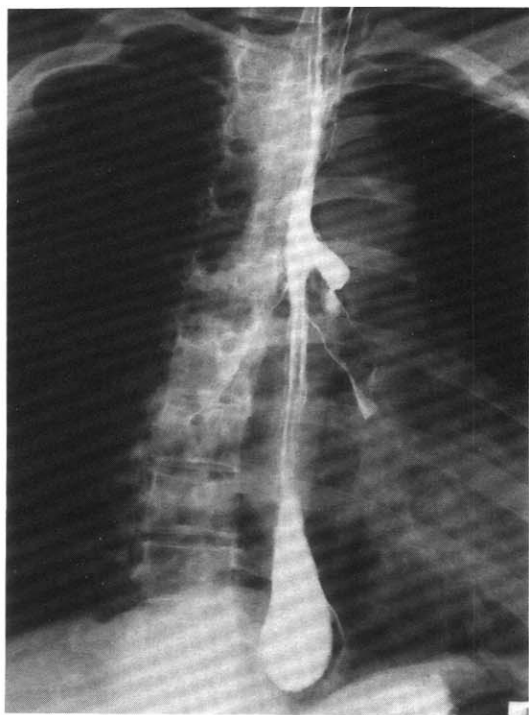


Fig. 2. Esophagogram showed the bronchoesophageal fistula between the middle esophagus and the left main bronchus.

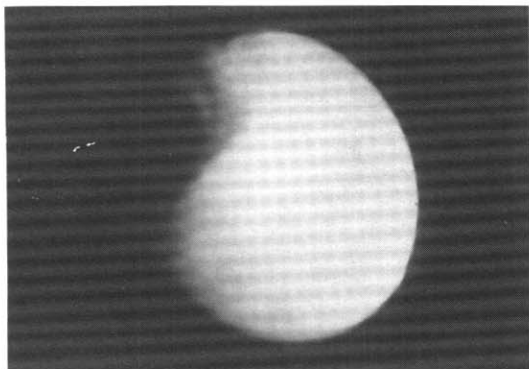


Fig. 3. Flexible bronchoscopic examination showed the fistula opening at the left main bronchus just distal to carina. There is no evidence of any inflammation around it.



Fig. 4. Flexible esophagogastrosopic examination showed the fistula opening at the mid esophagus, 24cm from incisor.

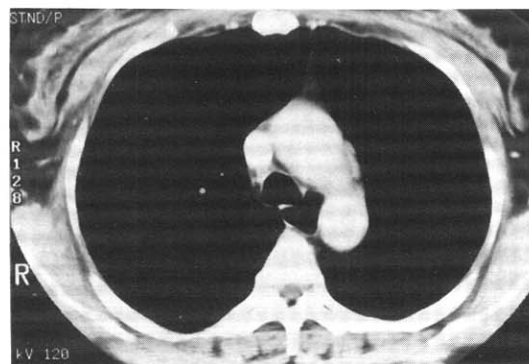


Fig. 5. Chest CT showed the fistula between left main bronchus and mid esophagus.

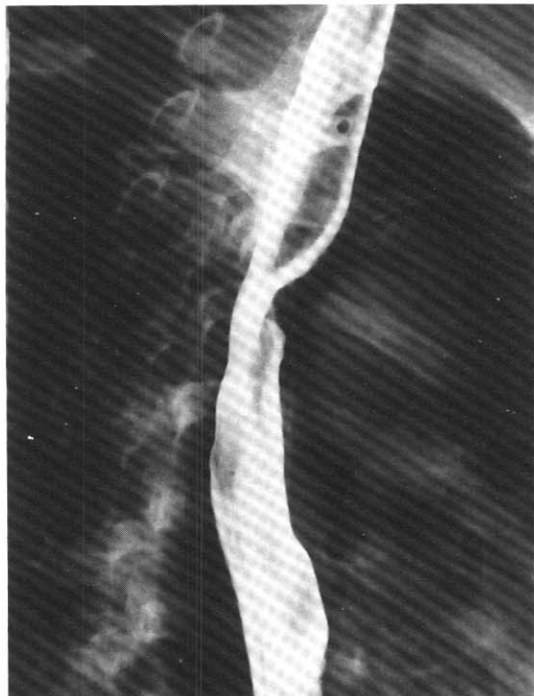


Fig. 6. Postoperative esophagogram. There were no abnormal findings. (POD#7)

위식도 내시경상에서는 절치(切齒, Incisor)에서 24cm 떨어진 곳에 누관이 관찰되었으며(Fig. 4), 위유문부 소만에 궤양이 관찰되었다. 흉부 CT촬영상 식도중간 부분과 우측 주기관지사이에 조그 만결손이 보였으며, 이외에 다른 병변은 보이지 않았다(Fig. 5).

수술소견 : 좌측 하엽의 늑막에 전반적인 유착이 있었으며, 누관은 식도 중간부분에서 나와 용골(龍骨, Carina)에서 1cm 떨어진 좌측 주기관지의 전방측면에 거의 평행하게 연결되어 있었다. 누관을 절제하고 식도쪽 개구부와 기관지쪽 개구부를 각각 봉합하였다. 누관내면의 직경은 0.2 cm이며 편평상피로 피복되어 있었다. 절제된 누관의 길이는 1cm 정도였으며 누관내 점막층과 근육층이 있음이 확인되었고 주위에 석회화나 염증

소견은 없어 Smith⁶⁾ 등이 말한 기관지-식도루에서 선천성임을 나타내는 요소를 가지고 있었다.

수술후 식도조영술은 정상적인 조영물질의 통과를 보였으며 만성기침은 소실되었다(Fig. 6).

고 찰

만성기침이 지속될 때 한 번쯤은 고려해 봐야 할 질환²⁾으로는 후비루증후군(Postnasal drip syndrome), 천식, 만성기관지염, 기관지확장증, 약제(안지오텐신 전환효소 억제제 등), 폐종양, 백일해, 좌심실부전 등이 있다. 상기 환자에서는 다른 증상은 없이 단지 만성 기침만을 주소로 내원하였으며, 문진상 음식을 삼킬 때 더 심해졌으며, 잠잘때나 활동시에 더 심해지는 것은 아니었으며 위에 열거한 질환을 의심할만한 이상은 없었다. 환자의 문진소견상 음식의 연하운동과 관련된 기침의 원인을 찾기위해 상부위장관 촬영을 시행하였으며 검사상 기관지식도루가 발견되었다.

선천성 기관지-식도루의 임상증상은 누관(Fistula)의 크기, 기간, 원인에 따라 다양하다. 주증상은 연하시 발작적으로 기침이 발생하는 것으로 대부분 만성 호흡기 감염의 증상을 동반하게 된다. 65% 환자에서 유동음식 섭취시 갑자기 기침이 나다가, 배와위로 음식을 삼키면 기침이 사라지는 Ono's sign⁷⁾이 나타나며, 50%환자에서는 폐의 화농을 동반한다⁸⁾. 누관이 폐혈관이나 기관지 혈관과 교통하면 각혈을 유발하기도 하고 연하곤란이 있을 수 있으나 흔한 증상은 아니다. 그밖에 호흡곤란, 천명음, 반복되는 흡인성 폐염, 폐농양, 기관지 확장증, 구토, 토혈 등이 있을 수 있다. 전신증상으로는 체중감소 발열 통증 애성 등을 볼수 있다. 본 예에서는 Ono's sign과 비슷한 증상이외는 전혀 의심될만한 임상증상은 보이지 않았다. 단순 흉부 방사선 소견은 대개 비특이성

소견을 보이고 대개 정상소견을 보인다. 진단은 식도조영술에 의해 할 수 있으며, 식도 영화 촬영법이 가장 정확한 진단방법으로 되어 있고, 기관지 조영술로 누관을 진단할 수 있으나, 더 중요한 의미는 폐손상 정도를 분석하는데 있다. 본례와 같이 기관지경 검사와 식도내시경검사에서 누관이 관찰되는 경우도 있다.

Risher⁹⁾등이 1990년에 선천성 기관지식도루 100례를 분석하여 발표하였는데, 남(53%), 여(47%)간의 빈도차는 없었으며 환자의 연령 분포는 생후 9일에서 83세까지 다양하였고 76%가 17세 이상의 성인이었다. 누관의 위치는 식도 중간 1/3부위와 우하엽간의 교통이 제일 많았으며(41%), 좌하엽(21%), 우측주기관지(18%) 등의 순서였다.

증상발현이 늦은 이유로 Jackson과 Coates⁹⁾는 누관을 얇은 막이 막고 있다가 나중에 파열된다고 하였고, Mullard¹⁰⁾와 Negus¹¹⁾들은 식도의 점막 주름이 판막 역할을 하다가 만성 염증 후 그 역할이 소실된다고 하였으며, Demong¹²⁾등은 누관이 경사각을 이루며 위치하여 식도축이 낮기때문에 연하시 닫히게 된다고 하였다. Paulin¹³⁾등은 세 번째 가설을 지지하면서 추가로 대개 누관에 근육층이 존재하고 이 근육층이 수축을 할 수 있어서, 누관의 해부학적 위치와 근육 경련이 누관을 통한 식도 내용물의 역류를 방지하기 때문에 출생직후 증상이 나타나지 않는데 기여한다고 하였다.

선천성 기관지-식도루의 구분은 Bambridge, Keith³⁾의 구분이 널리 알려져 있는데 제 1형은 식도의 선천성 계실이 있고, 이곳에서 정체가 일어나 감염되어 폐내로 천공되는 것으로 선천성의 배경은 있으나 누관이 일차적으로 감염에 의해 생길 수 있으므로 견인성 형태의 식도 계실과의 구분이 어려울 수 있다. 따라서 선천성 기관지-식도루의 병태생리학적인 발생 기전은 아직 의문시

되고 있다. 제 II형은 가장 단순한 형태로 짧은 누관이 식도에서 폐로 직접 주행한다. 제 III형은 폐엽내에 낭종이 형성되어 식도와 누관으로 연결된 형태이고, 제 IV형은 누관이 폐격리증의 기관지와 연결된 형태이다. 제II형이 가장 많은 형이며 본 예에서도 제 II형으로 나타났다.

치료는 1948년 Haight가 개흉에 의한 수술을 처음으로 성공시킨이후 개흉을 통한 누관의 절제술만으로 좋은 치료결과를 보이고 있으며 폐엽의 손상이 동반된 경우는 폐조직의 절제가 동시에 필요하다고 되어있다. 누관의 길이가 짧고, 직경이 3mm이하이고, 석회화된 종격동 임파절이나 다른 폐병변이 없는 경우 내시경하에 Silver nitrate나 Sodium hydroxide로 소작함으로써 치료할 수 있다고 하며¹⁴⁾, 절제하지 않고 자동봉합기 (Autosuture stapling instrument)를 이용하여 식도와 평행하게 단순봉합하기도 하는데 수술 시간이 짧고 수술부위의 손상이나 오염이 적다. 선천성 기관지-식도루의 수술결과는 대부분 좋으며, 수술후 합병증도 드물다.

결 론

본 저자들은 동반된 다른 질환과 증상없이 단지 만성 기침만을 호소하는 환자에서 문진상 음식물을 삼킬 때 더 심해지는 경우에, 식도조영술에 의해 선천성 기관지식도루가 진단되었으며, 기관지 내시경과 위내시경으로 확인되어 수술치험하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1) 김자억, 노준량 : 선천성 기관지식도루 (H 자

형 수술 1예 보고). 대한흉부외과학회지 12 : 110, 1979

- 2) John F. Murray, Jay A. Nadel, : Textbook of Respiratory Medicine, second edition, p538, Philadelphia : WB Saunders Co, 1994
- 3) Braimbridge MV, Keith HI : Oesphago-bronchial fistula in the adult. Thorax 20 : 226, 1965
- 4) Bokoe, S., Magovern, G.J. Liebler, G.A., Park, S.B., and Cushing, W.J. : Congenital bronchoesophageal fistula in the adult. Chest 66 : 201, 1974
- 5) William H. Risher, Robert M. Arensman, and John L. Ochsner, ; Congenital brochoesophageal fistula. Ann. Thorc. surg 49 : 500, 1990
- 6) Smith, D.C. : A congenital broncho-esophageal fistula presenting in adult life without pulmonary infection. Brit. J. Surg 57 : 389, 1970
- 7) Lukens RM, Ono J : Syphilitic tracheoesophageal fistula : Report of case. Laryngoscope 44 : 334, 1934
- 8) Hendry P, Crepeau A, Beatty D : Benign bronchoesophageal fistulas. J Thorac Cardiovasc Surg 90 : 789, 1985
- 9) Jackson C, Coates GM : The nose, Throat and Ear and Their Disease. Philadelphia : WB Saunders Co. p1124, 1929
- 10) Mullard KS : Congenital tracheoesophageal fistula without atresia of the esophagus. J Thorac Surg 28 : 39, 1954
- 11) Negus VE : Oesophagus from a middle aged man, showing a congenital opening into trachea. Proc R soc Med 22 : 527, 1929
- 12) Demong CV, Grow JB, Heitzman GC : Congenital tracheoesophageal fistula without

- atresia of the esophagus. Am Surg 25 : 156,
1959
- 13) Paulin R, Longtin L, Madhavian F : Congenital
broncho-esophageal fistula in adult. Can Med
Assoc 102 : 964, 1970
- 14) Clerf, L.H. : Esophagobronchial Fistula : report
of two cases. Tr. Am. Laryng., Rhin, Otol.
Soc., p.35, 1945.
-