

성인에서 식도폐쇄를 동반하지 않은 (H-type) 선천성 기관식도루 1예 보고

영남대학교 의과대학 진단방사선과학교실

변우목 · 정경희 · 조길호 · 김선용 · 황미수 · 장재천

영남대학교 의과대학 내과학교실

정 문 관

영남대학교 의과대학 흉부외과학교실

이 철 주

— Abstract —

Congenital Tracheoesophagal Fistula with no Esophageal Atresia (H-type) in Adult (A Case Report)

W.M. Byun M.D., K.H. Jung M.D., K.H. Cho M.D., S.Y. Kim M.D., M.S. Hwang M.D., J.C. Chang M.D.

Yeungnam University, College of Medicine, Diagnostic Radiology

M.K. Chung M.D.

Yeungnam University, College of Medicine, Internal Medicine

C.J. Lee M.D.

Yeungnam University, College of Medicine, Cardiothoracic surgery

Congensital tracheoesophageal fistula with no esophageal atresia is considered a rare type anomaly, especially in adult age. We report a case of isolated tracheoesophageal fistula with no esophageal atresia with review of literature.

I. 서 론

기관지와 식도에 나타나는 선천성 기형중 식도폐쇄를 동반하지 않은 기관식도루(H-type)은 드문 것으로 알

이 논문은 1986년 7월 8일에 접수하여 1986년 8월 5일에 채택되었음.

려져 왔다. 이 H-type은 1873년 Lamb¹⁾가 처음 보고한 이래 1954년 Ware²⁾, 1961년 Lynn³⁾, 1966년 Moncrief⁴⁾등이 보고하였다.

영남대학교 부속병원에서는 최근 성인 남자에서 H-type의 기관식도루를 식도조영술 및 식도경검사에 의해 진단하여 수술하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

2. 증례보고

환자 ; 22 세, 남자

주소 ; 약 6개월간의 체중감소 및 위장관의 불쾌감
과거력 ; 어렸을 때부터 식사후 가끔 기침이 동반되면서
음식물이 튀어나왔으며, 상기도감염 및 폐염을 가끔
앓았고, 이에 대한 대증치료를 받아왔다.

가족력 ; 특이사항 없음.

이학적 소견 ; 특이사항 없음

검사 소견 ; 특이사항 없음

방사선학적 소견 ;

1) 단순 흉부 X-선 ; 정상(Fig. 1).

2) 식도조영술 ; Dianasil 을 이용한 식도조영술에
서 식도 상 1/3 부분(제 1~2 흉추부위)에서 직경 1.5
cm의 짧은 기관식도루가 관찰되었다(Fig. 2).

내시경 검사 ; 절치에서 20 cm 하방의 식도에서 기관
지와 연결된 루가 발견되었으며, 그외는 위염 소견만을
나타내었다.

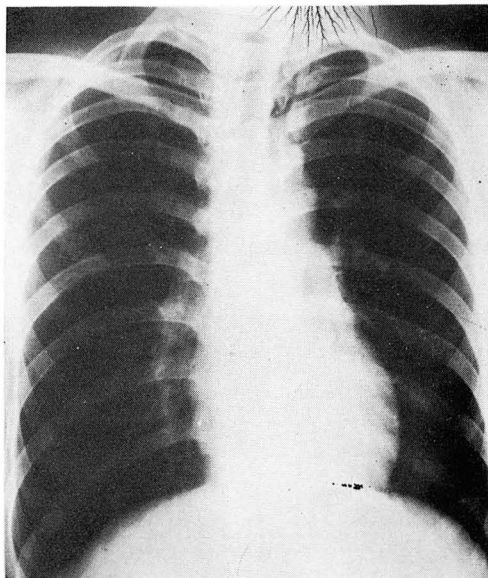


Fig. 1. Chest PA. Within normal limits.

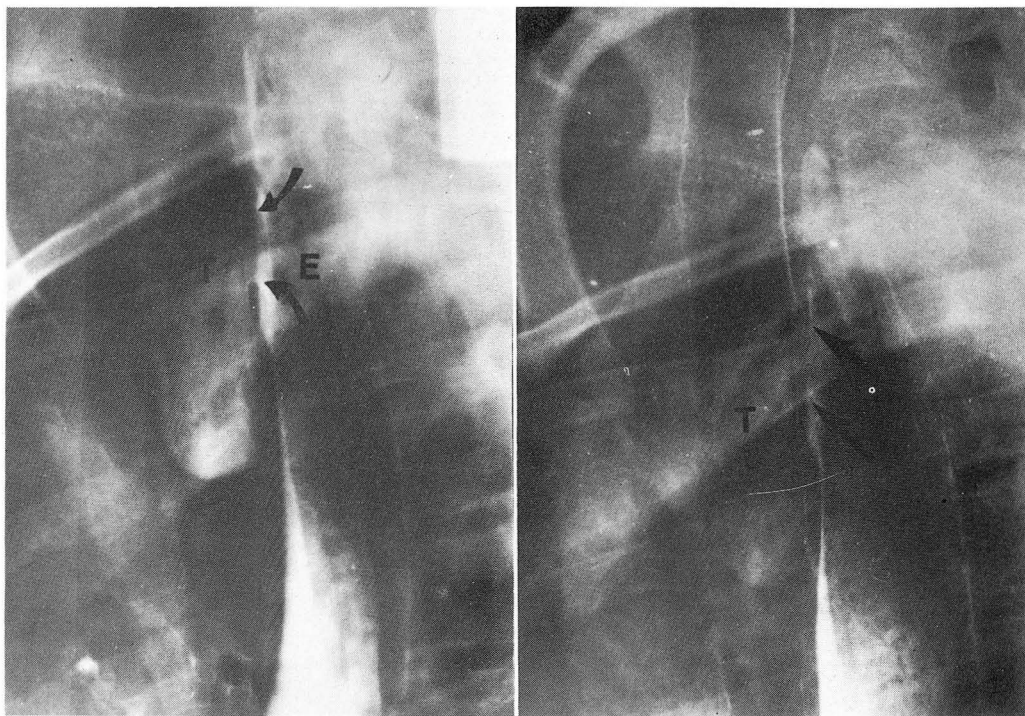


Fig. 2. A & B. Esophagogram with Dianasil® through the nasogastric tube. A tracheoesophageal fistula at the upper esophagus at the level of T1-2 junction is noted. The fistula measures 1.5cm in width.

수술소견 ; 기관식도루 근처에 섬유성 유착이 심하였으며, 기관식도루는 기관지 후벽과 식도 전벽 사이에 직경 1.5 cm, 길이 0.5 cm 정도였으며, 절단면에서는 육안적으로 염증성 변화는 보이지 않았고, 점막은 깨끗하였다.

수술경과 ; 수술 3일후부터 비위장관을 통해 유동식 음식을 주입하였고, 수술 7일째 식도조영술을 시행하여 조영제의 식도외로의 누출이 없는 것을 확인후(Fig. 3) 유동식부터 먹이기 시작하였으며, 수술 13일째 특별한 문제없이 퇴원하였다.

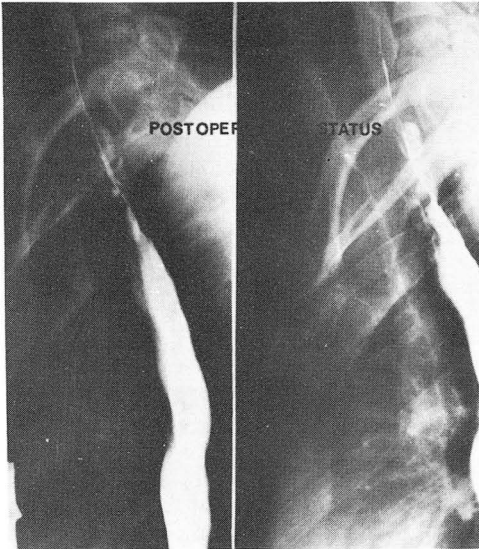


Fig. 3. Postoperative follow up esophagogram. There is no evidence of leakage of contrast media.

3. 문헌고찰

식도 및 기관(지)는 태생 3~4주에 전장(foregut)에서부터 발생한다. 태생 초기에는 식도와 기관이 하나의 관으로 되어 있다가 전장의 양측 벽에서 내측으로 주름(fold)이 생겨 점차 깊어지면서 식도와 기관 사이에 중격(septum)을 형성하여 태생 6~8주에 식도와 기관이 완전히 분리가 된다^{4~6)}(Fig. 4). 이때 기관·식도 사이의 중격이 정중선에서 만나지 못하면 기관식도루가 생기게 되며, 이 측벽의 주름이 뒤로 돌아 식도를 막으면 식도폐쇄를 동반하게 된다.

선천성 식도폐쇄 및 기관식도루의 발생빈도는 Pott⁷⁾ 등에 의하면 2500출산당 1명, Halder⁸⁾ 등은 3000출산당 1명으로 보고하였으며, 형태학적 분류는 Gross⁹⁾ Vogt¹⁰⁾ 등이 하였다(Table 1). 또한 Holder¹¹⁾ 등에 의한 각 형의 발생빈도는 Table 2와 같다.

H-type의 선천성 기관식도루의 발생부위는 아무데서

Table 1. Classification of congenital esophageal atresia with T-E fistula

Vogt	II	IIIa	IIIb	IIIc	—
Gross	A	B	C	D	E

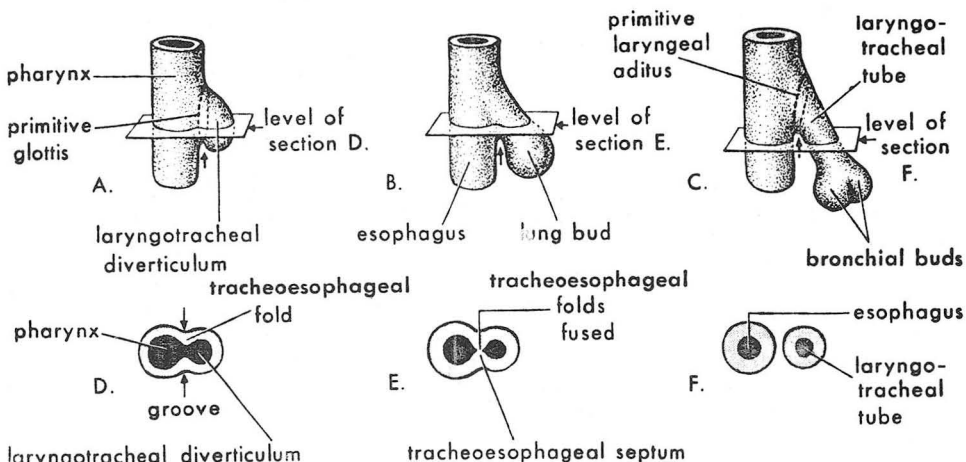


Fig. 4. Successive stages of development of the tracheoesophageal septum during the fourth weeks. (From Moore KL, The developing human. W.B. Saunders, 1982)

Table 2. Incidence of congenital esophageal atresia with T-E fistula in terms of types (From Holder TM, Pediatrics, 34:542, 1954)

Type	No. (%)
Esophageal atresia without TEF	82 (7.7)
Esophageal atresia with proximal TEF	9 (0.8)
Esophageal atresia with proximal and distal TEF	7 (0.7)
Esophageal atresia with distal TEF	916 (86.5)
TEF without esophageal atresia	44 (4.2)

나 생길 수 있으나, 대부분 기관과 식도상부에 발생하여, Moncrief의 보고에 의하면 H-type의 70% 이상이 제 2 흉추 상방, 즉 기관의 상 1/3 과 중 1/3 사이에 생긴다⁴⁾. 또한 기관식도루의 방향은 대부분 저자와 같이 식도의 전벽과 기관의 후벽 사이에 위치한다¹²⁾.

H-type의 선천성 기관식도루의 진단^{5,12)}은 첫째 특징적인 징후군으로, 음식물을 삼킨 후 동반되는 기침이나 질식, 간헐적인 목부팽창, 반복되는 기관지 폐염의 병력, 둘째, 단순흉부 X-선상 흡인성 폐염이나 만성 폐염, 세째는 기관지 및 식도조영술, 네째는 내시경검사에 의해 이루어진다.

국내에서 보고된 논문에서는 대부분이 Vogt type III b이며^{13,18)}, 나이 역시 대부분이 영아 및 유아군에서 발견되었다. 저자들의 경우에서와 같이 H-type의 선천성 기관식도루가 발견된 예는 극히 드물며, 국내에서는 아마도 처음 보고되는 것 같다.

McKinney¹⁹⁾의 보고에 의하면 오랫동안 지속된 위장관의 불쾌감 및 구토, 기침을 나타낸 58세 환자에서 기관지경 검사상에서는 기관식도루가 보였으나, 식도경검사에서는 발견하지 못했으며, 45세의 여자 환자의 부검에서 H-type의 기관식도루가 발견되었는데, 식도쪽으로 작은 판막이 있어 식도에서 기관으로 음식물의 역류를 막는 것으로 생각하였다. 본 증례에서는 이런 판막을 발견하지는 못하였지만, 성인이 될 때까지 별 증상이 없이 지낸 것으로 보아 위의 기전이 작용되지 않았나 생각되어진다.

방사선학적으로 H-type의 기관식도루를 잘 관찰하기 위해서는 Leigh¹²⁾ 등은 다음과 같은 점에 유의하면 도움을 많이 얻을 수 있다고 하였다. 첫째로 환자의 촬영 위치로, 기관식도루의 방향이 대부분에서 식도의 전벽

과 기관후벽 사이에 있기 때문에 복외위로 찍는 경우, 기관식도루가 식도내의 조영제 때문에 가릴 수 있어, 좌우 전사위(anterior oblique)가 적당하고, 둘째는 식도관(esophageal tube)의 정확한 위치로 기관식도루가 대부분에서 상부 식도에 위치하므로, 관의 끝부분이 적어도 기관분기부(carina) 상부에 놓여져야 한다. 세째로, 조영제의 선택은 바륨은 부적당하고, Dianasil 등의 조영제를 사용하는 것이 좋다. 마지막 네째로는 촬영소견의 적절한 해석이 필요하다. 기관식도루를 통해 기관(지)가 혼탁화(opacification) 되면서, 조영제가 기관(지) 상하로 빠른 속도로 퍼져나가는 것을 보면 매우 진단적이다. 가끔은 기관식도루가 조영제가 찬 식도나 기관때문에 안보일 수 있기 때문에 주의깊게 투시하여 전 과정을 살펴보아야 한다.

또한 폐염은 H-type에서 많이 동반되는데, 이 폐감염의 가장 중요한 인자는 기관식도루의 개통(patency) 여부이며, 보고된 예중 성인에서 가끔 폐의 심각한 염증증상이 없이 나타나는 것으로 보아 기관식도루의 크기나 기간(duration)은 별로 중요하지 않은 것으로 사료된다.

기관식도루가 식도조영술에 의해 발견되지 않을 때에는 기관조영술(tracheogram)에 의해 보일 때가 있다. 이때는 양외위로 하여 촬영하면 기관식도루가 보일 수 있는데, 이는 기관식도루방향 및 기관벽이 경직(rigid)되어 있기 때문에 기관식도루 주위벽의 collapse가 안일어나 조영제가 쉽게 흘러들어갈 수 있기 때문이다.

방사선학적 진단방법이외에 기관지경 또는 식도경검사가 중요한 진단방법이 될 수 있으며, 치료는 외과적 수술만이 근본적인 방법으로 우측 목의 아랫부분 또는 우측 늑막강을 통해 들어가 기관식도루를 분리봉합하는 방법 등이 있다.

4. 결 론

식도폐쇄증을 동반하지 않은 기관식도루(H-type)의 발생빈도는 특히 성인에서 발견되는 경우가 매우 드물다.

최근 영남대학교 부속병원에서 1예의 H-type의 기관식도루가 식도조영술 및 식도경검사에 의해 발견되어 수술로 확인되었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Lamb DS: *A fatal case of congenital tracheoesophageal fistula*, Philadelphia M. Times 3:705, 1873.
2. Ware GW, Cross LL: *Congenital tracheoesophageal fistula without atresia of the esophagus*. Pediatrics 14:254, 1954.
3. Lynn HB, Davis LA: *Tracheoesophageal fistula without atresia of the esophagus*. Surg. Clin. N. Amer., 41:871, 1963.
4. Moncrief JA, Randolph JG: *Congenital tracheoesophageal fistula without atresia of the esophagus*. J. Thorac. Surg. 51:434, 1966.
5. Moore KL: *The developing human, Clinically oriented embryology*. 3rd ed. Saunders, Philadelphia, pp217, 1982.
6. Singleton EB, Wagner ML, Dutton RV: *Radiology of the alimentary tract in infants and children*. 2nd ed. Sanders, Philadelphia, pp14-15, 1977.
7. Potts WJ: *Congenital deformities of the esophagus*, Surg. Clin. N. Amer., 31:97, 1951.
8. Holder TM, Asocraft KW: *Esophageal atresia and tracheoesophageal fistula*. Ann. Thorac. Surg. 9:445, 1970.
9. Gross RE: *The Surgery of infancy and children*, Philadelphia, W.B. saunders, 1953.
10. Vogt EC: *Congenital esophageal atresia*, AJR, 22:463, 1929.
11. Holder TM, Could DT, Lewis JE, etal: *Esophageal atresia and tracheoesophageal fistula; A survey of its members by the surgical section of the american academy of pediatrics*. Pediatrics 34:542, 1954.
12. Legih TF, Abbott OA, Hopkins WA: *Roentgenologic consideration in tracheoesophageal fistula without esophageal atresia*, Radiology 57:87, 1951.
13. 김수용, 김세환, 김영우 : 선천성 식도폐쇄증 및 기관식도루 수술 1예 보고. 대한흉부외과학회지 3 : 21, 1970.
14. 광문섭, 김세환, 이흥균 등 : 식도폐쇄증 및 기관식도루의 임상적 고찰. 대한흉부외과학회지 3 : 25, 1970.
15. 노준량, 장돈식, 이 영 등 : 선천성 식도폐쇄증 4예 보고. 대한흉부외과학회지 5 : 153, 1972.
16. 김형묵, 유건일, 이관재 등 : 선천성 식도폐쇄 및 기관식도루 2예 보고. 대한흉부외과학회지 6 : 89, 1973.
17. 채성수 : 선천성 식도폐쇄 및 기관식도루 4예 보고. 대한흉부외과학회지 16 : 127, 1983.
18. 이현금, 김용관, 윤영순 : 식도폐쇄, 기관식도루, 심장우위 및 우측 폐위축. 소아과 10, 347, 1967.
19. Mckinney R: *Tracheoesophageal fistula, probably congenital in woman 58 year of age*. Ann. Otol. Rhin. Laryng. 42:1237, 1933.