

## 신생아에서 발견된 기관지원성 낭종 1례

제명대학교 의과대학 소아과학교실, 흉부외과학교실\*

김인주 · 이성환 · 김천수 · 이상락 · 박창권\* · 이광숙\* · 권태찬

### 서 론

기관지 원성 낭종(bronchogenic cyst)은 소아에서 종격이나 폐에 드물게 발견되는 선천성 기형으로 신생아에서는 세계적으로 수례로 극히 드물게 보고되었다<sup>1-3)</sup>. 크기가 작은 경우는 별다른 증상이 없지만 큰 경우는 위치에 따라 호흡기 증상이나 수유장애가 발견되기도 하였다<sup>4)</sup>. 저자들은 천명과 수유장애를 증상으로 입원하여 초음파와 컴퓨터 단층촬영으로 낭종이 의심되어 수술과 병리조직학적 검사로 확진된 신생아기의 기관지원성 낭종을 국내 처음으로 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증례

환아 : 지○○ 아기, 남아, 생후 2일.

주소 : 출생 이후부터의 간헐적인 천명.

출산력 및 가족력 : 31세와 28세된 부모의 첫번째 아이로 다른 병원에서 재태기간 39주, 출생체중 3.78 kg으로 정상 질식분만하였고, Apgar점수는 8/1분, 9/5분 이었으며 가족력상 특이사항은 없었다. 산모에서 양수과다증은 없었다.

현병력 : 출생 이후부터 청색증이 동반되지 않는 간헐적인 천명이 청진되어 본원으로 전원되었다.

이학적 소견 : 맥박수 138회/분, 호흡수 56회/분 이었고, 외견상 활동적이었으며, 입술에 청색증은 없었고 심음은 정상이었으며 청진상 천명이 들렸고 경한 늑간 함몰이 있었다. 복부에 간비대는 없었고 Moro, 흡혈 및 울음반사들은 정상이었다.

검사 소견 : 입원 당시 말초혈액 소견상 혈색소 16.5 gm/%, 백혈구수 14,640/mm<sup>3</sup>(중성구 66%, 임파구 27%), 혈소판수 218,000/mm<sup>3</sup>, 혈청은 0 mm/hr 이

었으며, 혈청 전해질 검사에서 sodium 137 mEq/L, potassium 4.8 mEq/L, chloride 104 mEq/L, calcium 8.9 mg/dl 이었고, 혈당 102mg%, 간기능검사상 AST 64 U/L, ALT 10 U/L, ALP 148 U/L 이었다. 동맥혈가스분석에서 pH 7.28, PaCO<sub>2</sub> 34.8 mmHg, PaO<sub>2</sub> 72.5 mmHg, HCO<sub>3</sub><sup>-</sup> 16.3 mEq/L, base excess -9.3 mEq/L, 산소포화도 92.9%이었다. 혈액배양 검사에서 균 성장은 없었다.

방사선 소견 : 흉부 X-선 검사(Fig. 1)에서 좌측 폐 상부에 음영이 증가된 폐렴의 소견이 있었고, 식도 및 기관지 조영술(Fig. 2)에서 식도와 상부 기관지가 전방으로 압박되어 전위되어 있었다. 폐렴에 대한 항생제(ampicillin, cefotaxime) 치료 중 7병일부터 수유감소가 동반되어 시행한 경부 초음파(Fig. 3) 및 컴퓨터 단층촬영(Fig. 4, 5)에서 28×21 mm의 타원형

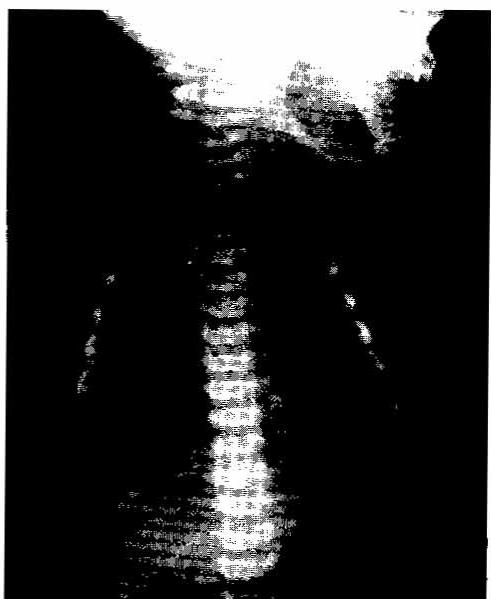


Fig. 1. Chest X-ray shows haziness on left upper lung field.

낭종이 발견되었다.

**치료 및 경과 :** 입원 당시 선천성 폐렴 의심하에 항생제 투여를 하였으나 증상 호전 없었으며 낭종에 대하여 10병일 경피적 흡인으로 2 cc의 점액성 분비물을 제거하였고 흡인액의 배양검사에서 균의 성장은 없었다. 이후 증상 호전 있다가 17병일 부터 호흡곤란과 수

유장애가 재발되어 외과적 제거를 하였으며(Fig. 6), 병리조직 검사상(Fig. 7) 상피세포가 가중총 섬모원주 세포와 일부 편평상피화로 이루어진 기관지원성 낭종으로 진단되었고 수술후 환자는 수유량이 증가되며 천명이 소실되어 퇴원하였다.

## 고 찰

기관지원성 낭종은 태생기의 원시 전장(primitive



Fig. 2. Bronchogram and esophagogram shows mass effect (arrow heads indicate) displacing the trachea and esophagus.

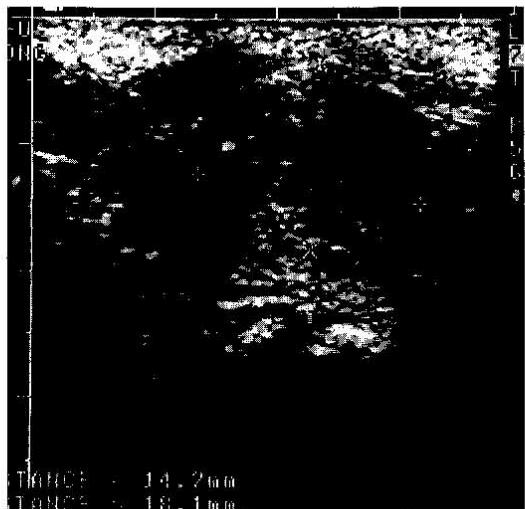


Fig. 3. Ultrasonogram of neck reveals well defined, thick-walled cystic mass lesion.



Fig. 4



Fig. 5

Fig. 4, 5. Computed tomography of neck reveals well defined cystic mass lesion extending from left pyriform sinus to mediastinum, along tracheoesophageal groove.

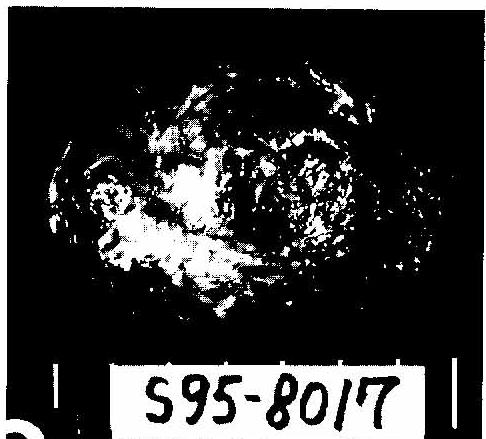


Fig. 6. Gross specimen reveals a cystic mass, 3.2×2.2×1.8 cm in size.



Fig. 7. Cyst lining consists of pseudostratified ciliated columnar epithelium and focal areas of squamous metaplasia( $\times 100$ ).

foregut)의 발육 이상으로 기관계실(tracheal diverticulum)의 비정상적 발아(budding)로 생기는 것으로 알려져 있으며<sup>4)</sup> 1911년 Blackader와 Evans<sup>5)</sup>에 의해 처음 기술되었다.

발생 부위는 보고자에 따라 차이가 있어 Di Lorenzo 등<sup>6)</sup>은 종격에 가장 흔한 것으로 보고하였고, Ramenofsky 등<sup>7)</sup>은 20례중 폐내가 12례(60%)로 가장 많았으며, 그외 종격 4례(20%), 경부 3례(15%), 늑막하 1례(5%)이었다고 하였고, Rogers와 Osmer<sup>8)</sup>는 태생기 비정상 발아 시기와 관계가 깊어 약 30%에서는 기관지 발생 초기에 생겨 종격에 위치하며 나머지 70%는 기관지 발생 후기에 생겨 폐내에 생긴다고 하였다. 드물게 피하<sup>9)</sup> 혹은 경부<sup>1, 10)</sup>에서 발생하는

것도 보고되었으며, 저자들의 경우는 비교적 드문 상종격에서 발생되었다.

증상은 위치나 크기에 따라 다양하며<sup>11)</sup>, 크기가 큰 경우나 기관분기부(carina) 근처 위치하는 경우에는 주위 호흡기를 압박하여 출생직후부터 호흡곤란등의 증상이 동반되는 것으로 보고되었다<sup>4, 12)</sup>. 유증상인 경우 기침, 발열, 흉통, 반복성 폐렴, 호흡곤란, 연하곤란등이 보고되어지며<sup>6, 7, 11)</sup> 본례는 상부 기관지를 눌러서 출생 직후부터 호흡곤란과 수유장애의 증상과 폐렴이 있었다.

낭종의 일부에서 대엽외 폐경질, 인접 폐의 낭성 기종성 변화, 우심증, Down 증후군, 누두증, 청색증형 심장병 등의 기형이 동반되기도 하며<sup>7, 13)</sup>, 드물게 악성 종양이 동반되는 경우가 보고되었다<sup>14)</sup>.

발견은 소아기나 성인기에 흉부 X-선 검사로 우연히 발견되거나 폐렴등의 감염 혹은 흉곽내 종양증상으로 되어지며<sup>7, 15)</sup>, 진단은 방사선 검사로 가능하고 초음파가 특히 병변의 부위를 확인하는데 도움을 주는 것으로 알려져 있으며<sup>2, 6, 11)</sup> 산전 초음파 검사로 발견되기도 하였다<sup>15, 16)</sup>. 그외 상부 위장관 조영술로 식도의 압박을 기관지경 검사로 기관이나 주 기관지의 압박을 확인할 수 있었다<sup>6, 17)</sup>. 근래 컴퓨터 단층촬영이 진단에 많이 이용되어져서<sup>3, 6, 18)</sup> 이는 폐낭종이나 선천성 낭포성 선종양 기형과 감별할 수 있는 이점이 있는 것으로 보고되었다<sup>3)</sup>. 본례는 식도 조영술로 의심되어 초음파 검사 및 컴퓨터 단층촬영으로 낭종을 확인하여 조직 검사로 확진하였다.

종격에 낭종이 위치한 경우 흉부 X-선 검사에서 심한 과통기(hyperaeration), 폐기종, 무기폐, 종격동 이동 등의 소견이 보고된다<sup>7, 19)</sup>.

병리조직학적으로 상피세포가 가중층 섬모원주세포와 일부 편평상피화로 되어 있으며, 평활근과 연골 및 점액선이 존재하여 다른 낭종과 감별되어지며 염증이 동반된 경우 상피와 주위 조직이 파괴되어 진단이 어렵게 되기도 하는 것으로 알려져 있다<sup>9)</sup>. 본례는 상피세포가 가중층 섬모원세포와 일부 편평상피화가 보였다.

치료는 1948년 Maier<sup>20)</sup>에 의해 처음 성공적 결과를 얻은 수술적 낭종 완전 절제술을 일반적으로 시행하며, 특히 재발성 낭종이나 악성 변성이 있는 경우 좋은 방법으로 알려져 있다<sup>14, 21)</sup>. 수술적 제거후 예후

는 좋은 것으로 알려져 있고<sup>7,13)</sup>, 본례도 수술후 별 후유증 없이 완치되었다.

## 결 론

저자들은 생후 지속적인 천명과 수유곤란의 증상을 가진 신생아에서 식도와 기관지 조영술, 경부초음파 및 컴퓨터 단층촬영에서 상·중격 낭종이 의심되어 외과적 절제후 병리조직검사로 기관지 원성 낭종이 확진된 1례를 경험하였기에 문헌적 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 참 고 문 헌

- 1) Touloukian RJ: Air filled bronchogenic cyst presenting as a cervical mass in the newborn. *J Pediatr Surg* 17:311-312, 1982
- 2) Rudas G, Kadar K: Bronchogenic cyst diagnosed by ultrasonography in a neonate. *Radiol Med Torino* 76:488-489, 1988
- 3) Dale PJ, Shaw NJ: Bronchogenic cyst presenting in the neonatal period. *Acta Paediatr* 83:1102-1103, 1994
- 4) Stern RC: Bronchogenic cysts: In Behrman RE, Kliegman RM(Eds): *Nelson Textbook of Pediatrics*. 15th ed, Philadelphia, WB Saunders Co, 1996, p1200
- 5) Blackader AD, Evans DJ: A case of mediastinal cyst producing compression of the trachea, ending fatally in an infant of nine months. *Arch Pediatr* 28:194-200, 1911
- 6) Di Lorenzo M, Collin PP, Vaillancourt R, et al.: Bronchogenic cysts. *J Pediatr Surg* 24:988-991, 1989
- 7) Ramenofsky ML, Leape LL, McCauley RGK: Bronchogenic cyst. *J Pediatr Surg* 14:219-224, 1979
- 8) Rogers LF, Osmer JC: Bronchogenic cysts, a review of 46 cases. *AJR* 91:273-283, 1964
- 9) Fraga S, Helwig EB, Rosen SH: Bronchogenic cysts in the skin and subcutaneous tissue. *Am J Clin Pathol* 56:230-238, 1971
- 10) Gessendorfer H: Cervical bronchial cyst. *J Pediatr Surg* 8:435, 1973
- 11) Sirivella S, Ford WB, Zikria EA, et al.: Foregut cysts of the mediastinum, results in 20 consecutive surgically treated cases. *J Thorac Cardiovasc Surg* 90:776-782, 1985
- 12) Yerman HM, Holinger LD: Bronchogenic cyst with tracheal involvement. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 99:89-93, 1990
- 13) Buntain WL, Isaacs H, Payne VC, et al.: Lobar emphysema, cystic adenomatoid malformation, pulmonary sequestration, and bronchogenic cyst in infancy and childhood. A Clinical Group. *J Pediatr Surg* 9:85-93, 1974
- 14) Krouse HF, Sexauer CL: Embryonal rhabdomyosarcoma arising with a congenital bronchogenic cyst in a child. *J Pediatr Surg* 16:506-508, 1981
- 15) Albright EB, Crane JP, Shackelford GD: Prenatal diagnosis of a bronchogenic cyst. *J Ultrasound Med* 7:91-95, 1988
- 16) Young G, L'Heureux PR, Kruekeberg ST, et al.: Mediastinal bronchogenic cyst: Prenatal sonographic diagnosis. *AJR* 152:125-127, 1989
- 17) Hansen T, Corbet A, Avery ME: Bronchogenic cyst: In Taesch HW, Ballard RA, Avery ME (Eds): *Schaffer & Avery's Diseases of the Newborn*. 6th ed, Philadelphia, WB Saunders Co, 1991, p546-548
- 18) Caudill JL, Lloyd TV: Use of computed tomography in evaluation of acute respiratory distress in a 4.5-month-old with bronchogenic cyst. *Clin Pediatr* 26:601-604, 1987
- 19) Gerami S, Richardson R, Harrington B, et al.: Obstructive emphysema due to mediastinal bronchogenic cysts in infancy. *J Thorac Cardiovasc Surg* 58:432-434, 1969
- 20) Maier HC: Bronchogenic cysts of the mediastinum. *Ann Surg* 127:476-502, 1948
- 21) Miller DC, Walter JP, Guthaner DF, et al.: Recurrent mediastinal bronchogenic cyst. *Chest* 74:218-220, 1978

= Abstract =

**A Case of Bronchogenic Cyst in a Neonate**

In Joo Kim, M.D., Sung Hwan Lee, M.D., Chun Soo Kim, M.D.  
Sang Lak Lee, M.D., Chang Kwon Park, M.D.\*; Kwang Sook Lee, M.D.\*  
and Tae Chan Kwon, M.D.

*Department of Pediatrics, and Chest Surgery\*, Keimyung University  
School of Medicine, Taegu, Korea*

Bronchogenic cysts are rare congenital lesions, especially during neonatal period, arising from anomalous budding of the primitive tracheobronchial tube that can produce symptoms of respiratory compromise in infants and children.

We experienced a case of bronchogenic cyst in a 2-day-old male neonate, admitted in our hospital, who had the symptoms of persistent stridor and swallowing difficulty. Barium esophagogram and bronchogram showed tracheal and esophageal displacement, and ultrasonography and computed tomography of neck showed well defined thick-walled cystic mass lesion.

After surgical excision of the cyst, the symptoms of persistent stridor and swallowing difficulty were solved. The cyst wall was lined by respiratory epithelium with areas of squamous metaplasia, consistent with a bronchogenic cyst.

**Key Words :**

Bronchogenic cyst, Neonate