



Case Report

pISSN 2092-8335 • eISSN 2733-5380
Keimyung Med J 2020 39(1):52-56
<https://doi.org/10.46308/kmj.2020.00087>

Received: April 03, 2020
Revised: May 15, 2020
Accepted: May 15, 2020

Corresponding Author:

Ji-Hoon Park, M.D.
Department of Anesthesiology and Pain
Medicine, Keimyung University School of
Medicine, Dongsan Medical Center, 1035
Dalgubeol-daero, Dalseo-gu, Daegu 42601,
Korea
Tel: +82-53-258-7771
Fax: +82-53-258-6288
E-mail: cmjihoon@gmail.com

복강경하 부신경절종 제거술 중 발생한 일측성 미만성 폐포내출혈: 증례보고

김상백, 김지섭, 박지훈
계명대학교 의과대학 마취통증의학교실

Perioperative Diffuse Alveolar Hemorrhage During Laparoscopic Paraganglioma Removal: a Case Report

Sang Baek Kim, Ji Seob Kim, Ji-Hoon Park

Department of Anesthesiology and Pain Medicine, Keimyung University School of Medicine, Daegu, Korea

Diffuse alveolar hemorrhage is life-threatening situation which is rarely caused by paraganglioma or pheochromocytoma. Here, we describe anesthetic management of 64-year-old man underwent laparoscopic pararenal mass excision and later on this mass diagnosed as paraganglioma. We induced anesthesia with propofol 120 mg, sufentanil 12.5 µg, and rocuronium 50 mg. Anesthesia was maintained with sevoflurane administration. Patient position was changed to right lateral decubitus position for laparoscopic approach. Vital signs were stable until direct stimulation of mass. When surgeon started to manipulate pararenal mass, blood pressure suddenly increased to 274/169 mmHg and heart rate also increased to 140 beat/minute. SpO2 dropped to 69% and bilateral lung sounds decreased. We used intravenous esmolol to control blood pressure and heart rate. In doubt for bronchial spasm, we used intravenous hydrocortisol and chlorpheniramine maleate. Discharge of bloody fluid was obtained from endotracheal tube. Immediate postoperative chest x-ray showed diffuse air space consolidation in right lung field. We assessed as unilateral alveolar hemorrhage and patient was transferred to intensive care unit (ICU) without endotracheal extubation. The patient was followed up with ventilator care and antibiotic treatment in ICU, and daily chest x-ray was taken. He was extubated after showing favorable prognosis on postoperative day (POD) 4, and discharged on POD 7. Anesthesiologist should be aware that incidental manipulation of undiagnosed catecholamine producing tumor can lead to fatal consequences, and should know the management of hypertensive crisis and bronchial spasm.

Keywords: Bronchial spasm, Diffuse alveolar hemorrhage, Hypertension, Paraganglioma

Introduction

미만성 폐포내출혈은 호흡 부전을 일으킬 수 있는 치명적인 증상으로 조직학적으로 3가지 타입으로 구분할 수 있다. 폐 모세혈관염과 결합조직 손상, 혈관염, 감염이나 약물 중독과 같은 미만성 폐포 내 손상, 염증 없는 단순 폐출혈로 구분 한다[1,2]. 현재 부신경절종에 의한 미만성 폐포내출혈에 대한 소수의 보고가 있으나 그 기전에 대해서는 아직 불명확하다. 본 증례에서는 복강경하 부신경절종 제거술 중 수술적 자

© 2020 Keimyung University School of Medicine
© This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

극으로 과분비된 카테콜라민에 의해 발생한 고혈압 및 기관지 연축과 그 결과로 발생한 일측성 미만성 폐포내출혈 증례에 대해 보고하고자 한다.

Case Report

환자는 64세, 신장 166 cm, 체중 70 kg인 남자로서 신결우연종(크기 3.5 x 2.3 cm)에 대해 좌측 후복막 공간의 신경성 종양 의심 하에 복강경하 제거술 예정이었다. 과거력 상 발작 심실상성빈맥으로 7년 전에 고주파 절제술을 받았다. 수술 전 심전도 상 우각차단이 확인되었고 그 외 흉부 X선, 혈액 검사는 정상이었다. 수술 전 호르몬 검사는 시행되지 않았다.

마취 전 투약 없이 수술실에 도착하였고 기본 모니터링을 시행하였다. 혈압은 147/81 mmHg, 심박수는 63회/분, 산소포화도 96%로 확인되었다. 마취 유도는 propofol 120 mg, sufentanil 12.5 µg, rocuronium 50 mg을 사용하였다. 충분히 신경근 차단이 된 것을 확인 후 기관내삽관을 하였고 2.0 -2.5 vol%의 sevoflurane과 주기적인 sufentanil, rocuronium 주사로 마취를 유지하였다.

마취 30분 후 수술이 시작되었고 복강경 접근을 위해 환자는 우측 측와위로 자세를 변경하였다. 복강 내 이산화탄소 주입을 통해 기복강(pneumoperitoneum) 상태로 만들었다. 기복강 형성 후 흡기최고압이 19에서 29로 증가하였고 비위관을 삽관하여 흡입을 시행하였으나 변화는 없었다. 당시 산소포화도는 99%로 유지되었다. 종양 조작 전까지 혈압은 100-140/60-80 mmHg로 유지되었으나 수술 시작한 지 40분 경과 후 종양 적출을 위한 수술적 조작을 시작하면서 심박수의 변화 없이 혈압이 170/82 mmHg로 상승하였다. 5분 경과 후 갑자기 혈압은 274/169 mmHg까지 상승하였고 심박수가 140회/분으로 상승하여 esmolol을 20 mg씩 2회 투여하였다. 최대흡기압 또한 35 cmH₂O로 증가하여 흡입 마취제 농도를 증가시키고 인공 호흡기를 압력 조절 환기 모드로 하였으나 산소포화도는 지속적으로 감소하여 80%로 확인되었다. 20G 카테터를 이용하여 동맥감시장치를 거치한 후 시행한 동맥혈가스검사상 동맥내 산소분압 64 mmHg, 동맥내 이산화탄소분압 59.2 mmHg에 산소포화도는 88%로 확인되었다. 이후 혈압과 심박수는 안정적으로 유지되었으나 압력 조절 환기 모드로 최대흡기압이 30 cmH₂O 이상으로 유지함에도 충분한 호흡량이 유지 되지 않고 산소포화도 또한 69%까지 감소하였다. 청진 상 양측 폐음 감소된 양상을 보여 기관지 연축 의심 하에 hydrocortisol 50 mg과 chlorpheniramine maleate 4 mg을 정맥 투여한 후 맥박 산소포화도는 95%로 상승하였고 7분여 후 기복강을 위해 주입하던 이산화탄소를 차단하면서 산소포화도 99%, 흡기최고압도 19 cmH₂O로 회복되었다. 수술 종료 후 시행한 동맥혈가스검사상 흡입산소분율 1.0 상태에서 산소분압 116 mmHg, 이산화탄소분압 51 mmHg, 산소포화도 98%로 확인되었고 기관내 튜브를 흡입하였을 때 붉은

색의 혈액 양상의 분비물이 나오는 것을 확인하였다. 이에 수술실에서 흉부 X선 사진을 촬영하였고 우측 광범위 공기공간 폐경화 소견을 나타냈다(Fig. 1). 혈액성 기관내 분비물과 동맥혈가스검사 그리고 X선 결과를 바탕으로 미만성 폐포내출혈이 의심되어 기관내삽관을 유지한 채 집중치료실로 후송하였다.

집중치료실에서 흡입산소분율 0.6, 호기말양압 8 cmH₂O, 압력 조절 환기 모드로 호기 압력 6-12 cmH₂O, 호흡수 분당 15-20회로 환기를 하였다. 중환자실 입실 당일에는 기관 내 흡입상 pinkish 한 분비물이 나왔지만 그 이후에는 흡입상 특별한 소견은 없었다. 혈액 검사 상 troponin I 1.479로 조금 증가한 소견 이외에 다른 소견은 없었고 가슴 경유 심장초음파 검사 상 정상으로 확인되었다. 집중치료실에서 호흡기 치료 및 항생제 치료를 하며 경과를 관찰하였고 단순 흉부X선 또한 확인하였다(Fig. 2). 동맥혈가스 검사상 호전

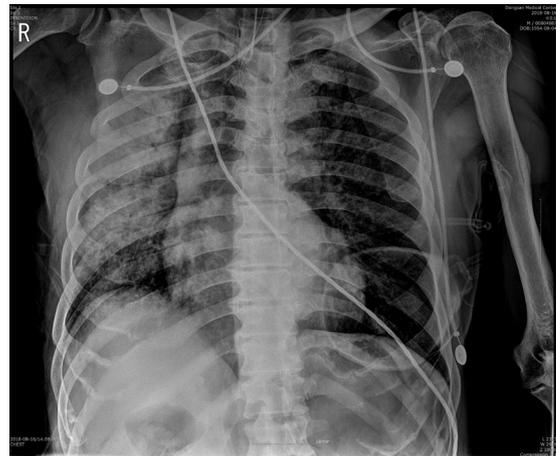


Fig. 1. Immediate postoperative chest X-ray. Diffuse air space consolidation is shown in right lung.



Fig. 2. Chest X-ray of POD3. Bilateral pleural effusion and consolidation of right lung are shown.

되는 양상 보여 수술 후 2일째 인공호흡기 모드를 압력 보조 환기로 전환하였고, 술 후 4일째 기관내 튜브를 발관하였으며 5일째 집중치료실에서 일반 병동으로 전동 되었다. 환자는 수술 7일째 흉부 X선 사진상 호전된 소견(Fig. 3) 보여 퇴원하였다.

Discussion

부신경절종은 흔하지 않은 신경내분비종양으로 전신에서 발생 가능하며 발생률은 대략 1/300,000으로 낮다[3]. 대부분의 경절종은 무증상 혹은 통증 없는 덩이로 발견된다. 호르몬을 분비하는 1-3% 만이 임상적으로 유의할 정도의 카테콜라민을 분비하며 부신에서 발생하는 크롬친화성세포종과 유사한 증상을 나타낸다. 수술 중 자극에 의해 심각한 혈역학적 이상을 보이는 경우는 크롬친화성세포종이 70%, 부신경절종이 30% 정도이다[4].

본 증례는 신결우연종의 진단이 술 후 생검을 통하여 부신경절종임이 확인된 사례로 술 중 수술적 자극에 의해 분비된 카테콜라민에 의한 과도한 혈압 상승에 의해 미만성 폐포내출혈이 발생한 것으로 보인다. 과도한 혈압 상승에 의한 폐포내출혈의 정확한 기전은 명확하지 않으나 몇가지 기전이 고려된다. 레닌, 알도스테론, 바소프린, 카테콜라민, 그리고 엔도텔린과 같은 체액성 요소들에 의한 폐포 모세혈관 손상이 일어날 수 있다는 것[4], 폐포 부종이 전신 고혈압에 의한 좌심실 부전에 의해 일어날 수 있다는 것[5], 기관지폐동 맥이 전신 혈관과 폐 순환에서 혈류를 공급받기 때문에 [6] 직접적으로 전신 고혈압에 의해 손상을 받을 수 있다는 것이 있다[7].



Fig. 3. Chest X-ray of POD 7. Consolidation of right lung is resolved.

과거에도 혈압 상승에 의한 미만성 폐포내출혈의 사례가 있었고 [2,7-9], 환자들은 대부분 남성이었고 신부전, 심부전, 망막병증과 같은 다른 장기 손상이 동반되었다.

본 증례는 술 중 마취되어 있는 상태에서 일어난 혈압 상승에 의한 일측성 미만성 폐포내출혈로 앞선 사례들과 차이를 보인다. 혈압 상승이 일어나기 전까지 수축기 혈압이 100~120 mm Hg로 안정적인 혈역학 수치를 유지하고 있었고 Bispectral Index Score (BIS) 또한 30-50으로 변동폭이 크지 않았다. 갑작스런 혈압 상승 시에도 BIS 값은 정상 값을 유지 하고 있어 얇은 마취로 인한 교감신경계 자극은 배제될 수 있다. 이외에도 술 후 촬영한 단순 흉부X선 사진을 비교하였을 때 우측 폐에만 음영이 보이는 것은(Fig. 1) 환자의 술 중 자세와 연관이 있을 것으로 보인다. 복강경 수술을 위해 우측와위 자세를 취할 경우 우측 폐가 기저 부위로 가게 된다. 측와위 시 폐의 혈류는 중력의 영향으로 기저부에 위치한 폐로 혈류가 많이 가게 된다. 또한 기계 호흡의 영향을 받게 되어 그 압력이 올라감에 따라 폐로 정맥 환류가 감소하며 폐 혈관의 저항이 증가한다. 이 때 폐의 혈류는 낮은 기저 부위로 더 많이 가게 되고 높은 부위로 적게 간다[10]. 또한 호기말양압을 사용하였을 때 무기폐를 줄일 수 있으나 더 많은 혈류를 낮은 부위로 가게 한다[11]. 따라서 우측 폐로 가는 혈류량이 더 많은 상태로 과도한 혈압 상승이 일어나게 되면 위에서 설명한 기전에 따라 일측성 미만성 폐포내출혈이 일어나게 되고 좌측 폐 보다 더 두드러지게 보여진다. 본 증례와 같이 갑작스런 혈압의 상승이 있을 시 혈압 조절과 함께 측와위에서 반측와위나 양와위로 자세를 변경시키고, 호기말양압을 일시적으로 사용하지 않는 것이 폐포내출혈의 발생을 줄일 수 있을 것이다.

본 증례에서는 수술 중 환자 혈압 감시를 비침습적 혈압 측정을 통해 5분 간격으로 이뤄졌고 침습적 동맥압 감시는 고혈압 사건이 일어난 후 이뤄졌다. 비침습적 혈압 측정은 측정에 시간이 소요 되게 되었고 이에 대한 혈압 조절 약물의 투여 및 반응을 평가하는데 시간이 소요 되었다. 고도의 고혈압 발생시 신속한 약물의 투여와 이에 따른 혈압 변화를 관찰해 혈압을 조절하는 것은 본 증례와 같이 고혈압에 따른 이차적인 합병증을 예방하기 위해 매우 중요하다. 따라서 본 증례와 같이 수술 전 호르몬 검사를 시행하지 않은 경우 침습적 동맥압 감시를 시행하는 것을 고려해 볼 수 있다.

폐포내출혈의 정확한 진단을 위해 기관지폐포세척이나 컴퓨터 단층촬영을 시행 할 수 있으나 본 증례에서는 호흡기 치료와 함께 환자의 증상 및 흉부X선 사진이 호전되는 양상을 보여 시행하지 않았다. 따라서 흉부 X선 사진 만을 고려할 때 폐포내출혈뿐 아니라 폐부종, 폐렴 등의 가능성도 배제할 수 없다. 그러나 혈압 상승이 있는 후 기관내튜브를 통한 흡입에서 핏빛 양상을 보였고 그 당시 시행한 동맥혈가스 검사 상 혈색소 수치가 17.9 g/dL였고 30분, 60분 뒤 시행한 검사상에서는 각각 16.4, 16.0 g/dL 확인되었다. 술 후 시행한 일반 혈액 검사상 14.8 g/dL로 지속적인 감소 양상을

보였기에 출혈이 있었을 것으로 예상된다. 이외에도 집중치료실에서 시행한 일반 혈액 검사에서 감염의 소견은 없었다는 점에서 단순 폐렴과 폐부종보다 미만성 폐포내출혈이 더 의심된다. 일측성으로 발생하였고 고혈압 지속 시간이 길지 않아 환자의 증상이 더 악화되지 않았고 회복 양상과 예후도 좋았던 것으로 생각된다.

또한 혈압 상승과 함께 기관지연축이 있었던 것으로 보인다. 혈압 상승 시 최대흡기압이 29 cmH₂O에서 35 cmH₂O로 상승하였고 hydrocortisol과 chlorpheniramine maleate 정맥 투여 후 증상이 호전되었다. 수술 중 발생한 기관지연축의 치료는 흡입 마취제의 투여를 증가시키고, 흡입성 베타2작용제, 정맥내 스테로이드, 마그네슘황산염, 케타민 등을 사용해 볼 수 있다. 과거에도 천식 과거력이 있는 환자에서 카테콜라민 분비 증양을 제거한 후 기관지연축이 재발하는 사례가 있었다[12,13]. 기관지의 운동은 부교감신경과 교감신경에 의해 조절되고 베타2 수용체의 자극은 기관지를 확장시키나 알파 수용체의 역할은 명확히 밝혀지지 않았다. 알파 수용체는 기관지에 아주 소수 존재하는 것으로 알려져 있고 자극 시 기관지 수축을 일으킨다[14,15]. 천식 과거력이 있는 환자들은 베타2 수용체에 대한 반응성이 감소되어 있고 반대로 알파수용체에 대한 반응성은 증가되어 있기 때문에 카테콜라민 분비 시 기관지 수축을 일으킨다[16,17]. 부신경절종의 지속적인 카테콜라민 분비에 의해 베타수용체가 탈감각화되고 술 중 분비된 카테콜라민에 의해 자극된 알파수용체에 의해 기관지 수축이 일어날 수 있다[18]. 본 환자의 경우 적절한 마취 심도를 지속적으로 유지하고 있었기 때문에 얇은 신경근 차단 상태에 의한 기관지 수축보다는 수술적 자극에 의해 분비된 카테콜라민의 작용으로 기관지연축이 일어난 것으로 보인다. 기관지 연축은 폐혈관 저항을 증가시켜 상승된 혈압과 함께 폐포내출혈을 일으켰을 것이다.

Summary

진단되지 않은 부신경절종의 수술은 흔치 않은 사례이나 크롬친화성세포종 제거술의 경우 본 증례와 같이 복강경으로 수술을 시행하게 된다. 마취통증의학과 의사는 부신경절종이 어떤 호르몬을 주로 분비하는지를 확인하고 전 처치를 확실하게 하여야 하며 그 전 처치로 억제된 카테콜라민에 의한 증상이나 수술적 자극에 의해 발생할 수 있는 과도한 혈압 상승에 대해 유의하고 있어야 하겠다. 또한 심혈관계 반응뿐만 아니라 기관지 연축과 같은 호흡기계 증상 또한 동반될 수 있음을 숙지하여야 하고, 수술 중 환자의 자세가 이러한 증상의 발현을 가중시킬 수 있음을 염두해 두고 수술 중 발생할 수 있는 상황에 대해 즉각적으로 대처해야 할 것이다.

Conflict of interest

All authors declare no conflicts-of-interest related to this

article.

References

- Lara AR, Schwarz MI. Diffuse alveolar hemorrhage. *Chest*. 2010;137:1164-71.
- Makuuchi Y, Wada M, Kawashima A, Kataoka Y, Miyahara M, Ikusaka M, et al. Paraganglioma-induced alveolar hemorrhage. *Intern Med*. 2015;54:487-9.
- Hariskov S, Schumann R. Intraoperative management of patients with incidental catecholamine producing tumors: a literature review and analysis. *J Anaesthesiol Clin Pharmacol*. 2013;29:41-6.
- Martins R, Bugalho MJ. Paragangliomas/Pheochromocytomas: clinically oriented genetic testing. *Int J Endocrinol*. 2014;2014. DOI: 10.1155/2014/794187
- Sato Y, Hara S, Yamada K, Fujimoto S. A rare case of alveolar haemorrhage due to malignant hypertension. *Nephrol Dial Transplant*. 2005;20:2289-90.
- Aithal S, Marley N, Venkat-Raman G. An unusual non-immunological cause of renal pulmonary syndrome. *Clin Nephrol*. 2009;72:322-5.
- Morita Y, Takase K, Ichikawa H, Yamada T, Sato A, Higano S, et al. Bronchial artery anatomy: preoperative 3D simulation with multidetector CT. *Radiology*. 2010;255:934-43.
- Suzuki A, Nakagawa N, Maruyama K, Matsuki M, Hasebe N. Diffuse alveolar hemorrhaging with hypertensive emergency: a rare but important cause of hemoptysis. *Intern Med*. 2019; 58:1511-6.
- Querol Ripoll R, del Olmo García MI, Cámara Gmez R, Merino-Torres JF. Diffuse alveolar hemorrhage as first manifestation of a pheochromocytoma. *Arch Bronconeumol*. 2014;50:412-3.
- Duarte JC, Leal R, Escada L, Alfaro TM. Systemic hypertension and the pathogenesis of diffuse alveolar haemorrhage. *Rev Port Pneumol (2006)*. 2017;23:47-9.
- West JB. Regional differences in the lung. *Chest*. 1978;74:426-37.
- Hedenstierna G. Contribution of multiple inert gas elimination technique to pulmonary medicine. 6. Ventilation-perfusion relationships during anaesthesia. *Thorax*. 1995;50:85-91.
- Hargreaves DM. Pheochromocytoma with asthma. *Anaesth Intensive Care*. 1989;17:90-3.
- Hampton KK, Wiles PG, Feely M. Noradrenaline-secreting pheochromocytoma causing remission of asthmatic symptoms. *Lancet*. 1986;1(8492): 1268-9.

15. Leff AR, Munoz NM. Evidence for two subtypes of alpha adrenergic receptors in canine airway smooth muscle. *J Pharmacol Exp Ther.* 1981;217:530-5.
16. Mathé AA, Aström A, Persson NA. Some bronchoconstricting and bronchodilating responses of human isolated bronchi: evidence for the existence of α -adrenoceptors. *J Pharm Pharmacol.* 1971;23:905-10.
17. Motojima S, Fukuda T, Makino S. Measurement of beta-adrenergic receptors on lymphocytes in normal subjects and asthmatics in relation to beta-adrenergic hyperglycaemic response and bronchial responsiveness. *Allergy.* 1983;38:331-7.
18. Henderson WR, Shelhamer JH, Reingold DB, Smith LJ, Evans R, Kaliner M. Alpha-adrenergic hyper-responsiveness in asthma. *N Engl J Med.* 1979;300:642-7.
19. Coret IA, Van Dyke HB. The altered blood-pressure response after adrenolytic drugs and large doses of sympathomimetic amines. *J Pharmacol Exp Ther.* 1949;95:415-20.