

천식으로 오인된 특발성 기도 협착 1예

제주대학교 의학전문대학원 ¹내과학교실, ²영상의학과학교실, ³병리학교실

김지영¹ · 이재천¹ · 이종후¹ · 성길명¹ · 정선영² · 현창립³

Idiopathic Tracheobronchial Stricture in a Patient with Asthma Mimicking-Symptoms

Ji Young Kim¹, Jaechun Lee¹, Jong Hoo Lee¹, Gil Myeong Seong¹, Sun Young Jeong² and Chang Lim Hyun³

Departments of ¹Internal Medicine, ²Radiology and ³Pathology, Jeju National University School of Medicine, Jeju, Korea

Background: Asthma is characterized by the symptoms of breathlessness, wheezing, chest tightness and cough, and variable airflow limitations that are reversible spontaneously or with treatment. The symptoms may be exacerbated by aggravating factors, such as exercise.

Case History: A 45 year old female patient presented at our clinic with breathlessness, chest tightness, wheezing and cough, especially during and after exercise. She visited regional hospitals, had undergone diagnostic bronchial provocation tests with methacholine and exercise, and had received

medical treatments for asthma.

Results: At presentation, spirometry exhibited an abnormal flow-volume curve, which was confirmed as large airway narrowing by chest computed tomography and bronchoscopic examination. Pathologic examination revealed focal calcification under the normal airway surface without inflammation.

Conclusion: We report the case of idiopathic tracheobronchial stricture in a patient with asthma-mimicking symptoms. (Korean J Asthma Allergy Clin Immunol 2012;32:61-65)

Key words: Asthma; Bronchi; Trachea; Pathologic constriction; Spirometry

서론

천식은 기도에 발생하는 만성염증으로 인해 기도과민성과 가역적 기류장애를 특징으로 하는 만성염증성 알레르기 질환이다. 발작적 호흡곤란과 기침, 가슴 답답함, 천명음 등의 증상이 자연적으로 혹은 운동, 찬 공기, 알레르겐, 약물 등 다양한 악화인자에 노출됨에 따라 악화와 호전이 반복되며, 폐기능검사를 통해 기도 폐쇄의 정도 및 가역성, 변동성을 확인하거나 특징적 기도과민성을 이용한 유발검사로 확진한다.¹⁾

주기도 혹은 좌우 주기관지에 종괴, 이물질 혹은 협착이 있는 경우에도 천식과 유사한 증상을 나타낼 수 있어 감별을 요한다.²⁾ 기도가 좁아지는 경우는 선천적 구조 이상, 사르코이드증이나 결핵과 같은 육아종병 후에 발생하는 협착, 간식이나 기관지성형술 등의 시술 후 합병증 등으로 발생할 수

있다.³⁾ 종괴, 이물질 혹은 협착에 의해 호흡기류의 와류가 발생하거나 물리적 기도영역의 감소로 기류제한이 생겨 호흡곤란, 천명, 기침 등 천식과 유사한 증상이 나타날 수 있다. 기관지확장제 투여 후 가역성의 유무, 메타콜린 기관지유발 검사 등으로 천식과 감별할 수 있고, 폐기능검사상 유량용량곡선(flow-volume curve)에서 고평부를 보이는 특징적인 모양을 보일 수도 있다.

평상시 무증상이며 운동 시 발생하고 악화되는 호흡곤란, 천명, 기침 등 천식의 특징적인 증상으로 천식으로 오인되어 치료를 받아 온 환자에서 특발성 기도 협착을 확인하였기에 이에 보고한다.

증례

환자: 양○○, 45세 여자

주소: 운동 시 발생하는 호흡곤란, 천명, 기침

현병력: 수년 전부터 빠르게 걸거나 경사진 곳에 오를 때 남들보다 유난히 심한 호흡곤란이 발생하였다. 호흡곤란이 발생하면 가슴이 답답하고 쉼쉼거리는 소리가 들렸고, 참을 수 없는 기침이 동반되었으며 다소간 안정을 취하면 증상이 완화되었다. 평소에 기침이나 객담, 야간발한, 체중감소 등의 증상은 없었고 1년에 한두 차례 콧물, 기침 증상의 감기를

책임저자 : 이재천, 제주특별자치도 제주시 아라1동 1번지
제주대학교 의학전문대학원 내과학교실, 우: 690-756
Tel: 064) 754-3915, Fax: 064) 717-1600
E-mail: doc4u@hanmail.net

투고일: 2011년 8월 8일, 심사일: 2011년 11월 14일

게재확정일: 2011년 11월 25일

Copyright © 2012 The Korean Academy of Asthma, Allergy and Clinical Immunology

않은 것 외에 특이 병력은 없었다.

상기 증상으로 환자는 여러 차례 병, 의원을 방문하였고 천식 의심하에 속효성 기관지확장제를 증상이 있을 때 사용해 보았으나 증상의 호전은 없었으며, 흡입형 스테로이드 및 지속형 기관지확장제를 규칙적으로 사용해도 증상이 호전되지 않았다. 서로 다른 병원 두 곳에서 천식 의심하에 폐기능 검사 및 메타콜린 기관지유발검사를 시행하였으나 특별한 이상소견이 발견되지 않았다.

과거력: 특이 과거병력, 천식약 외 약물 복용력 없음

직업력: 가정주부

사회력: 음주 및 흡연을 하지 않음.

가족력: 알레르기질환의 가족력 없음.

신체검사소견: 내원 당시 혈압은 110/70 mmHg, 심박동수 분당 61회, 호흡수 분당 20회, 체온 36.7°C였다. 급성 병색을 띠고 있지 않았고 결막은 창백하지 않았으며 가만히 앉은 상태에서 폐음 및 심음 청진 시 특이소견은 관찰되지 않았다.

검사실소견: 말초혈액검사에서 백혈구 4,600/mm³ (중성구 53.1%, 림프구 39.5%, 단핵구 5.9%, 호산구 1.1%, 호염기구 0.4%), 혈색소 12.8 g/dL, 혈소판 177,000/mm³이었으며 생화학 검사에서 이상소견은 없었다. 흉부 단순 방사선촬영에서 특이소견은 관찰되지 않았다.

폐활량측정기를 이용한 폐기능검사에서 FVC (forced vital capacity), 3.21 L (예측치의 92%), FEV₁ (forced expired volume in 1 second) 2.23 L (예측치의 79%), FEV₁/FVC 69%였으며, 속효성 기관지확장제 투여 후 FEV₁이 1% 상승하였다. 유량용량곡선에서 호기 시 고평부 소견을 보였다(Fig. 1). 특징적으로 운동 시 주로 증상이 발생하여 운동으로 악화되거나 유발되는 천식 의심하에 운동유발 폐기능검사를 시행하였다. 운동부하 후 30분까지 5분 간격으로 시행한 폐기능검사에서 FEV₁치가 운동부하 전과 비교하여 최대 -2% 변화하여 음성

으로 판정되었다.

유량용량곡선의 이상소견에 근거하여 흉곽내 폐쇄병변의 유무를 확인하기 위하여 조영증강 흉부 전산화 단층촬영을 시행하였다. 기관 원위부에서 양측 주기관지 인접부위까지 불규칙한 내강을 동반한 협착이 관찰되었으며 특히 우측 주기관지에 심한 협착이 관찰되었다(Fig. 2). 림프절이나 혈관 등 기도 외부에서 기도를 압박하는 구조물은 관찰되지 않았으며 양측 폐 실질에 이상소견은 보이지 않았다.

협착부위 관찰 및 조직검사를 위하여 기관지경검사를 시행하였다. 성대와 주기관에 특이소견이 관찰되지 않았으며 주기관 분기부부터 양측 기관지로 2~3 cm 원위부까지 불규칙한 표면을 보이는 기관지 협착을 보였다(Fig. 3). 비정상적

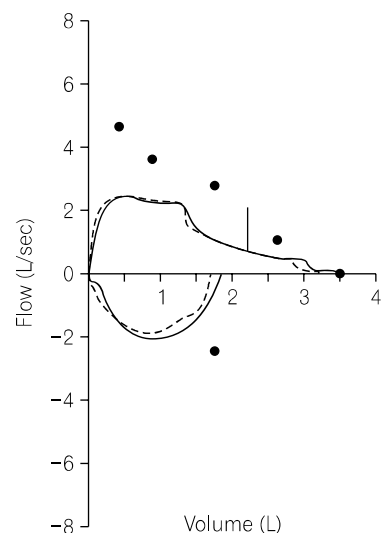


Fig. 1. Flow-volume curve of the patient showing abnormal plateau of expiratory loop. Dots indicate patient's predicted value, dotted line and unbroken line indicate flow-volume curve before and after bronchodilator.



Fig. 2. Coronal reformatted mediastinal window image (A) and 3D volume-rendering image (B) from chest computed tomography demonstrate segmental luminal narrowing of the distal trachea and both main bronchi, close to the carina; especially the right main bronchus (arrowed).

인 출혈이나 혈관노출소견은 없었으며 기관지경 접촉 후 출혈도 없었다. 기관지내 결핵 등의 육아종성 질환 및 악성신생물의 감별을 위해 기관지 세척 및 조직검사를 시행하였다.

기관지경을 조직검사 결과 정상적인 기도상피층인 섬모원주상피가 관찰되었으며 상피하층에는 림프구들과 함께 석회화를 동반한 뼈 형성소견이 관찰되었다. 뼈 형성 부위로 뼈세포와 뼈모세포가 관찰되었고 활동성 염증을 시사하는 소견이나 육아종성 병변은 관찰되지 않았다(Fig. 4). 기관지 세척액의 세포병리검사에서 암세포 등 이상소견은 관찰되지 않았고, 항산균 염색, 배양 및 결핵균 PCR검사는 음성소견이었다.

경과: 운동으로 인해 호흡횟수 및 기량이 증가하는 경우 기관지 협착에 의해 상대적 기도폐쇄의 심화 및 와류현상으로 인해 호흡곤란, 천명, 기침 등의 증상이 발생하였던 것으로 결론지었다. 기관지 협착의 원인으로 스스로 완쾌된 기관

지 결핵의 반흔을 의심하였으나 조직검사 결과 이를 증명할 수 없었다. 또한 기관지 협착을 유발할 수 있는 외상력이나 수술력도 없었다. 수년 전부터 증상이 있었으나 악화되지 않았고 조직검사상 염증 등의 진행성 병변이 없었기에 정기적인 추적 관찰을 권유하였다. 향후 증상이 악화되는 경우 기관지 내강을 넓히는 풍선 확장술이나 스텐트 삽입술을 고려하기로 하였다.

고 찰

천식을 의심할 만한 전형적인 증상 및 병력이 있더라도 드물게 다른 질환과의 감별이 필요한 경우가 있다. 본 증례의 경우 평소에는 무증상으로 지내다가 운동 시에만 호흡곤란, 기침, 천명음이 나타나 운동에 의해 증상이 유발되거나 악화되는 천식이 의심되었다. 서로 다른 두 기관에서 시행한

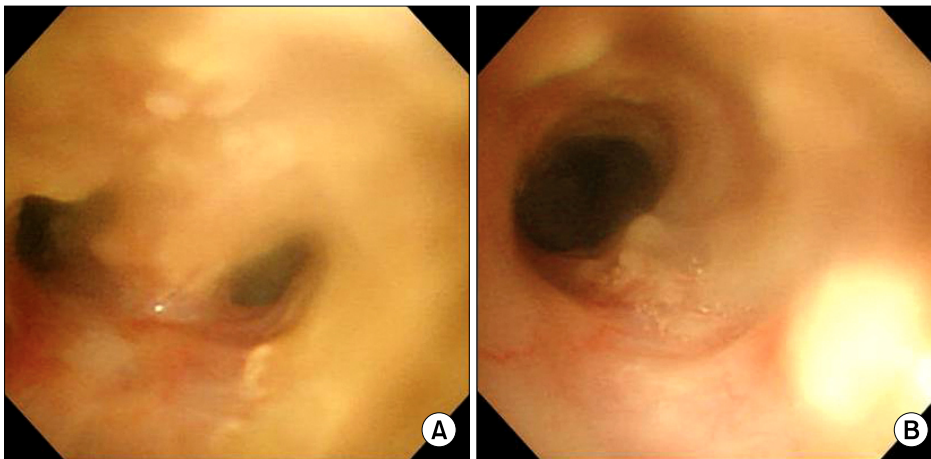


Fig. 3. The bronchoscopic view facing the carina (A) and the view at the entry of the left main bronchus (B) showing irregularly protruded surface and luminal narrowing.

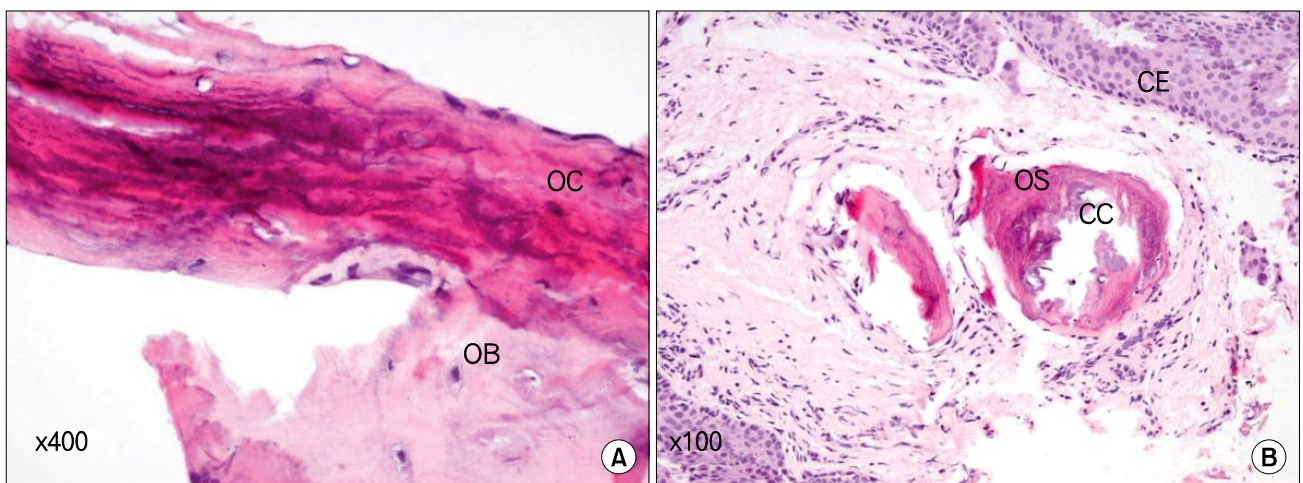


Fig. 4. Ossification with osteocyte and osteoblast under the normal airway epithelium (H&E staining, OS = ossification [pink]; CC = calcification [violet]; OC = osteocyte; OB = osteoblast; CE = columnar epithelium).

메타콜린 기관지유발검사서 모두 음성 소견을 보였다. 메타콜린 혹은 만니톨을 이용한 기관지유발검사는 90% 이상의 높은 음성예측도를 보여 천식이 의심되거나 음성을 보일 때는 다른 질환의 감별을 고려해야 한다.⁴⁾ 천식 유사 증상을 보이는 감별 질환은 기관 협착 및 이물 등에 의한 상기도 폐쇄, 성대의 기능 이상, 만성 폐쇄성 폐질환과 같은 다른 형태의 폐쇄성 폐질환, 미만성 폐실질 질환, 좌심실 부전 등의 폐외 질환 등이다.⁵⁾ 상기도 폐쇄의 경우 선천성 기형, 종양이나 육아 조직 등의 내강을 채우는 돌출성 병변, 주위 림프절이나 큰 혈관 등과 같은 종격동 구조에 의해 외인성 압박, 수술 후에 발생할 수 있는 기관 자체의 꼬임이나 꺾임과 같은 변형, 기관 삼관이나 외상 후에 발생할 수 있는 흉터 형성 등에서 발생할 수 있다.⁶⁾

본 증례와 유사한 예로 Lastra 등⁷⁾은 운동 시 발생하는 호흡곤란 증상으로 천식으로 오인된 34세 환자를 보고하였다. 기관지확장제에 폐기능 호전이 없었고 유량용량곡선에서 호기 시 고평부 소견을 보여 흉부 전산화 단층촬영을 시행하였고, 우측 대동맥궁과 왼쪽 쇄골하정맥의 기형에 의한 주기관지 외부압박에 의해 운동유발천식과 유사한 증상을 보였다. 또 다른 원인으로 기관 내 이물에 의해 천식으로 오인된 국내 보고에서는 수개월간 호흡곤란과 천명으로 천식 치료를 받았으나 호전이 없었던 환자에서 흉부 전산화 단층촬영으로 기관지 내 이물을 확인하고 기관지경을 통해 이물질 제거 후 천식 유사 증상이 호전되었다.^{8,9)}

본 환자의 경우 수년 전부터 증상이 생겨 선천성 기형의 가능성은 낮으며 조직검사 결과 종양이나 육아조직을 의심할 수 있는 소견이 발견되지 않았고 기도 협착부위 원위부로 재발하는 폐렴이나 다른 감염의 병력도 없었다. 또한 이전에 기도 협착을 유발할 만한 수술이나 시술 등을 받은 적이 없으며 기관 삼관이나 특정 외상의 병력도 없었다. 이와 같이 특정 기도 협착의 원인을 찾을 수 없는 경우 특발성 기도 협착으로 분류하며 드물게 보고되고 있다. Matthews와 Hooper¹⁰⁾는 젊은 여자에서의 발병한 특발성 기관 협착을 보고하였다. 과거 특이병력이 없으며, 조직검사서 증식성 변화만 관찰되고 육아종 형성이나 악성종양을 시사하는 소견을 보이지 않았다. Morimoto 등³⁾은 수차례 반복되는 폐렴으로 내원한 48세 남자에게서 우하엽 기관지에 심한 협착을 관찰하였는데 조직검사서 정상 섬모원주상피와 상피하층에 침윤된 림프구 외 특이소견은 없었으며 기관지 협착에 의해 재발하는 폐렴에 대해서는 예방적 우하엽 절제술로 치료하였다.

기관지 내 풍선 확장술이나 스텐트 삽입술이 개발되기 이전에는 기관지나 기관지 협착의 경우 수술적 절제 및 재문합이 유일한 치료법이었으나 현재는 수술 적응 조건을 만족하지 못하거나 환자의 전신 상태가 수술적 치료에 적절치 않을

때는 풍선 확장술과 스텐트 삽입술 등을 고려해 볼 수 있다.¹¹⁾ 풍선 확장술은 기도 내강 병변 부위에 풍선을 위치시키고 풍선에 압력을 가해 기도 내강을 확장시키는 방법이며 악성질환의 경우 풍선 확장술만으로는 치료 성적이 좋지 못하기 때문에 스텐트 삽입술을 병행하게 된다.¹²⁾ 특발성 기관 협착 23예의 기관지경을 이용한 치료를 분석한 후향적 다기관 연구에서 풍선 확장술을 약 80%, 스텐트 삽입술을 약 20%에서 시행하였으며, 치료 후 6개월 내 30% 가량 재발하였다.¹³⁾

본 증례의 조직소견에서 보인 기도 상피하 조직의 뼈 형성은 매우 드문 소견이다. 기관 혹은 기관지 내 다재내성 결핵에 의해 발생한 뼈 형성 사례가 국내에서 보고되었는데 뼈 형성의 원인으로 기관지 기도 상피하 조직의 만성적인 염증을 제시하고 있다.¹⁴⁾ 폐 이식 후에 발생한 기관지의 석회화와 뼈 형성에 대한 증례에서는 폐 이식 후 기관지에 허혈성 손상이 발생하고 이로 인해 감염과 염증이 반복되면서 조직학적 변성이 발생했다고 보고하였다.¹⁵⁾ 또한 기관지 샘종에서 뼈 형성 변화를 동반한 경우도 있는데 연골의 괴사와 석회화로 인한 기질의 변성이 뼈를 형성했을 가능성을 제시하였다.¹⁶⁾

본 증례의 환자는 수술이나 외상 등의 과거력이 없으며 조직검사상 암 세포 등의 다른 이상 소견이 없는 경우로 뼈 형성 외에 정상 기도상피세포를 가지고 있다. 과거 국내 비교적 흔한 결핵 등의 만성 염증성 질환의 후유증으로 인한 기도 협착이 의심되거나 병력상 이를 의심할 만한 소견이 없어 특발성 기도 협착으로 결론지었다.

결 론

천식 유사 증상으로 수년간 천식으로 오인되었던 환자에서 유량용량곡선 이상소견으로 기도 협착을 의심하였고, 전산화 단층촬영 및 기관지경검사로 특발성 기도 협착을 확인하여 보고한다.

참 고 문 헌

- 1) British Thoracic Society. British guideline on the management of Asthma [Internet]. London: British Thoracic Society. 2011 Aug. 7. [2009 June]. Available at: <http://www.brit-thoracic.org.uk/Portals/0/Guidelines/AsthmaGuidelines/sign101%20revised%20June%2009.pdf>
- 2) Boulet LP. Approach to adults with asthma. In: Adkinson NF Jr, ed. Middleton's Allergy: Principles and Practice. 7th ed. Philadelphia, Pa: Mosby Elsevier; 2008. p. 1346-63.
- 3) Morimoto K, Nakama T, Yamamoto A, Tanaka T, Enzann H, Ishida M. Idiopathic localized bronchostenosis in an adult man

- with frequent recurring pneumonia. *Intern Med.* 2009;48:1915-8.
- 4) Sverrild A, Porsbjerg C, Thomsen SF, Backer V. Airway hyper-responsiveness to mannitol and methacholine and exhaled nitric oxide: a random-sample population study. *J Allergy Clin Immunol.* 2010;126:952-8.
 - 5) Global Initiative for Asthma. Global strategy for asthma management and prevention [Internet]. GINA. 2011 Aug. 7. [2010] Available at: http://www.ginasthma.org/pdf/GINA_Report_2010.pdf
 - 6) Freitag L, Ernst A, Unger M, Kovitz K, Marquette CH. A proposed classification system of central airway stenosis. *Eur Respir J.* 2007;30:7-12.
 - 7) Lastra LP, Pimiento AP, Sánchez LA, Mosquera MR, Cubero AG. Be sure you are treating asthma. *Allergol Immunopathol (Madr).* 2006;34:127-8.
 - 8) Choi YK, Kim DH, Shin MK, Kim YS, Kim JH, Ku BH, et al. Occult foreign body aspiration in adults mimicking bronchial asthma. *Korean J Asthma Allergy Clin Immunol.* 2007;27:273-6.
 - 9) Sun BJ, Choi JY, Bae YJ, Park CS, Kim TB, Cho YS, et al. Delayed diagnosis of an endobronchial foreign body confused with bronchial asthma. *Korean J Med.* 2009;76:244-7.
 - 10) Matthews JI, Hooper RG. Idiopathic bronchial stenosis in a young woman. *Chest.* 1978;74:690-1.
 - 11) Shin JH, Song HY, Shim TS. Management of tracheobronchial strictures. *Cardiovasc Intervent Radiol.* 2004;27:314-24.
 - 12) Hautmann H, Gamarra F, Pfeifer KJ, Huber RM. Fiberoptic bronchoscopic balloon dilatation in malignant tracheobronchial disease: indications and results. *Chest.* 2001;120:43-9.
 - 13) Perotin JM, Jeanfaivre T, Thibout Y, Jouneau S, Lena H, Dutau H, et al. Endoscopic management of idiopathic tracheal stenosis. *Ann Thorac Surg.* 2011;92:297-301.
 - 14) Eum SY, Kong JH, Jeon BY, Cho SN, Kim J, Via LE, et al. Metaplastic ossification in the cartilage of the bronchus of a patient with chronic multi-drug resistant tuberculosis: a case report. *J Med Case Reports.* 2010;4:156.
 - 15) Yousem SA, Dauber JH, Griffith BP. Bronchial cartilage alterations in lung transplantation. *Chest.* 1990;98:1121-4.
 - 16) Thomas CP, Moragan AD. Ossifying bronchial adenoma. *Thorax.* 1958;13:286-93.