Case Report

대한소아응급의학회지 2015 제 2 권 제 2 호
Pediatric Emergency Medicine Journal
Volume 2, Number 2, December, 2015

대량 출혈로 내원하여 기관무명동맥루로 진단된 13세 남자 환자

김중헌 · 이정용 · 조형래 · 이종승[1] · 류정민[1]

울산대학교 의과대학 소아청소년과학교실, [1]응급의학교실

A tracheoinnominate artery fistula presenting with massive hemorrhage in a 13-year-old boy

Jung Heon Kim, M.D., Jeong-Yong Lee, M.D., Hyung-Rae Cho, M.D.,
Jong Seung Lee, M.D.[1], Jeong-Min Ryu, M.D.[1]

Departments of Pediatrics and [1]Emergency Medicine, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

Despite its rarity, a tracheoinnominate artery fistula can result in catastrophic hemorrhage. Here, we describe a case of a 13-year-old boy with such a condition following tracheostomy. After identification of pulsatile bleeding from the tracheostoma, temporary control of hemorrhage was obtained using hyperinflation of the tracheostomy tube cuff. Subsequently, a lesion indicative of a tracheoinnominate artery fistula was found on a computed tomography scan, and the diagnosis was confirmed at surgery. After surgery, he was discharged with no recurrent bleeding. This case highlights the importance of high suspicion and prompt management of tracheoinnominate artery fistula.

Key Words: Tracheostomy; Brachiocephalic Trunk; Fistula; Hemorrhage; Child

서 론

기관절개술의 치명적인 합병증에는 튜브의 폐쇄 및 빠짐 외에도 출혈이 있다. 출혈은 3.0%-5.7%에서 발생하며, 이 중 대부분은 급성기에 발생하는 경미한 출혈이다[1,2]. 하지만, 기관무명동맥루(tracheoinnominate artery fistula)는 시술 48시간 이후에 대량 출혈을 유발할 수 있다. 이 질환은 기관절개술을 시행한 환자 중 0.6%-0.7%에서 발생하지만 치료받지 못할 경우 사망률이 100%이므로, 이에 대한 신속한 응급처치와 감별진단이 중요하다[3]. 국내에서 소아 환자의 기관무명동맥루 증례는 아직 보고되지 않았다. 본 저자는 기관절개술 시행 후 발생한 출혈을 주 증상으로 내원하여 기관절개튜브 커프의 과다팽창을 통한 응급처치 후, 기관무명동맥루로 진단된 13세 남자 환자의 증례를 보고하고자 한다.

증 례

13세 남자 환자가 내원 당일 기침을 하다가 기관절개튜브가 빠지면서 출혈이 발생하여 본원 응급실에 방문하였다. 방문 직전, 환자의 어머니가 스스로 약 500 mL의 혈액을 흡인하고 기관절개튜브를 다시 삽입하였지만, 응급실 도착 당시에도 박동성 출혈이 간헐적으로 반복되고 있

Corresponding Author Jeong-Min Ryu
Department of Pediatric Emergency Medicine, Asan Medical Center Children's Hospital, University of Ulsan College of Medicine, 88 Olympic-ro 43-gil, Songpa-gu, Seoul 05505, Korea
Tel: +82-2-3010-3350 Fax: +82-2-3010-3360
E-mail: qweynaver@naver.com

었다. 환자는 8세에 레녹스-가스토증후군(Lennox-Gastaut syndrome) 및 뇌성마비로 인해 반복되는 폐렴으로 기관절개술을 시행한 이후 기관절개튜브를 유지하고 있었으며, 내원 10일 전에 본원 이비인후과 외래에서 기관절개튜브를 교체한 이후 발열, 상기도감염, 외상 없이 평소와 동일한 상태로 지내고 있었다.

응급실 도착 당시 활력징후는 혈압 105/72 mmHg, 호흡수 32회/분, 심장박동수 98회/분, 체온 36.6°C, 동맥혈산소포화도 100%였고, 의식은 명료하지만 불안해 보였다. 양쪽 폐에서 협착음, 천명음 및 수포음은 들리지 않았고, 심장음은 잡음 없이 규칙적으로 들렸다. 피부는 차갑고 땀으로 젖어 있었다.

이후, 박동성 출혈이 지속되어, 흡인을 반복하면서, 앰부주머니를 이용한 인공환기 및 생리식염수 덩이주사투여(20 mL/kg)를 시작하고 기관절개튜브 주위를 거즈로 압박하였다. 이에 반응이 없어, 이비인후과에 협진 의뢰하였고, 튜브의 커프를 과다팽창시키고 튜브를 약 2 cm 뺐더니, 출혈은 멈추었다. 이후 혈압이 91/60 mmHg, 심장박동수 160회/분으로 확인되어, 교차적합검사를 생략하고 농축적혈구 수혈(10 mL/kg)을 시행하였다.

말초혈액검사에서 백혈구 6,100/㎕, 헤모글로빈 13.0 g/dL, 혈소판 267,000/㎕, 프로트롬빈 시간 12.9초, 활성화부분트롬보플라스틴 시간 30.8초, C-반응단백질 0.23 mg/dL, 혈액요소질소 14 mg/dL, 크레아티닌 0.38 mg/dL, 젖산 2.2 mmol/L였고, 동맥혈가스분석에서 pH 7.36, 산소분압 75 mmHg, 동맥혈산소포화도 94%, 이산화탄소분압 39 mmHg, 중탄산염 23.3 mEq/L였다. 단순흉부방사선사진에서 좌하엽에 흡인폐렴을 시사하는 병소가 있어, 경험적 항생제(cefotaxime, ampicillin-sulbactam)를 투여하였다.

환자는 출혈이 멈추고 혈압 98/65 mmHg, 심장박동수 117회/분인 상태에서, 중환자실에 입원하였다. 입원 직후 시행한 흉부 컴퓨터단층촬영에서, 무명동맥과 기관 사이에 위치하고 기관무명동맥루를 시사하는 작은 혈관이 관찰되어(Fig. 1A), 응급 수술이 결정되었다.

수술실에서, 기관절개창 주변에서 육아조직을 제거하면서 관찰하였지만, 출혈병소는 발견되지 않았다. 이어서 기관 내부를 검사하기 위해 기관절개튜브 커프에서 공기를 뺐더니 박동성 출혈이 발생하였다. 커프에 공기를 주입하여 압박 지혈한 후 다시 튜브를 제거하였더니 기관의 앞쪽 벽에서 박동성 종괴가 발견되었고(Fig. 1B), 이는 컴퓨터단층촬영에서 관찰된 기관무명동맥루 병소로 판단되었다. 흉부외과 협진을 통해, 무명동맥에서 누공이 발생한 부분을 절제한 후 우회술을 시행하였고, 기관에서 기관연화가 진행된 부분을 절제하고 단단연결술을 시행하였다. 이후 재출혈 및 기타 합병증은 발생하지 않았고, 수술 후 11일만에 퇴원하였다.

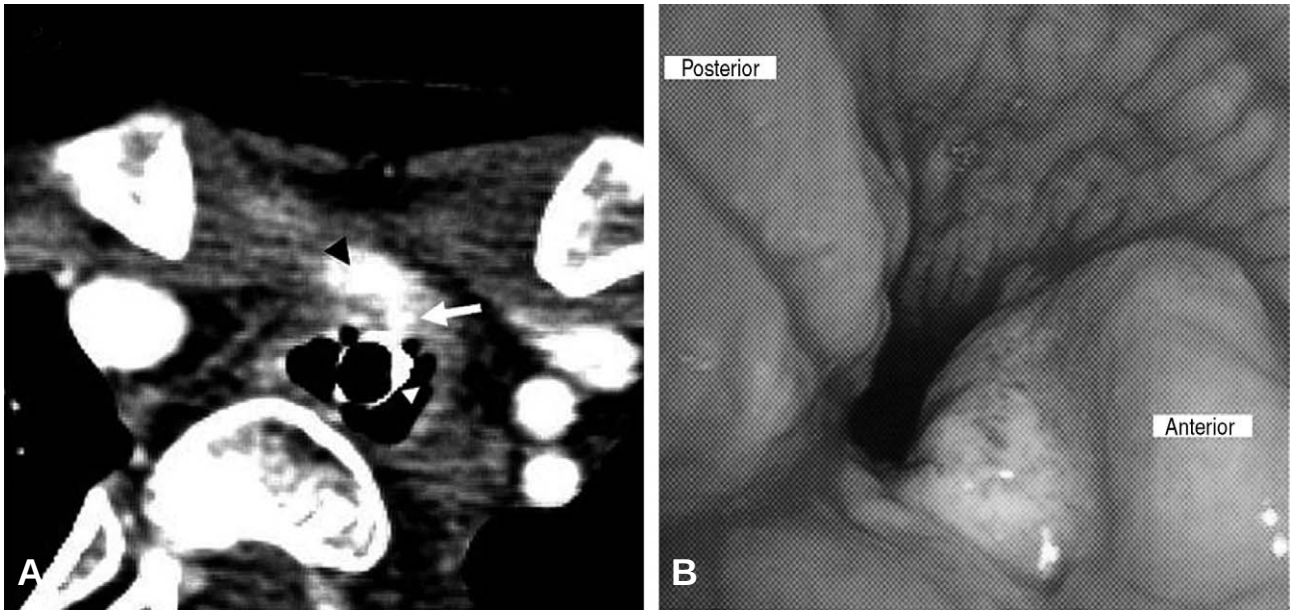

Fig. 1. Results of computed tomography scan and rigid bronchoscopy suggessting tracheoinnominate artery fistula. (**A**) A vessel-like structure with contrast enhancement (arrow) between the innominate artery (black arrowhead) and abutting tracheostomy tube (white arrowhead) is noted (**A**). It shows a pulsatile mass on the anterior wall of the trachea (**B**).

고 찰

기관절개술 시행 48시간 이후에 절개창 또는 튜브를 통해 10 mL 이상의 출혈이 있을 경우, 가장 중요한 감별진단은 기관무명동맥루이다[3]. 기관절개술 후 출혈은 48시간을 경계로 구분해야 한다. 48시간 이내의 출혈은 표재혈관에서 기인하는 경우가 대부분으로 국소적인 처치를 통해 지혈되지만, 48시간 이후에 발생하는 출혈은 대량 출혈인 경우가 비교적 흔하다[2,4]. 대량 출혈을 유발하는 대표적인 합병증인 기관무명동맥루는, 주로 기관절개튜브의 끝부분이나 높은 압력의 커프에 의한 무명동맥의 미란이 원인이며, 발생률이 가장 높은 시기는 시술 후 48시간에서 3주 사이로 알려져 있다[3,4]. 본 증례에서는 기관절개튜브 교체 후 10일 만에 발생하였다. 50%의 환자에서 대량 출혈 이전에 소량의 출혈(sentinel bleeding)이 선행할 수 있으므로, 48시간 이후에는 경미한 출혈이라도 주의깊은 관찰이 필요하다[2]. 위험인자로는, 높은 커프 압력(〉 20 mmHg), 낮은 기관절개술 위치(제4 기관륜 하방), 높은 무명동맥 위치, 목의 움직임에 따른 튜브와 무명동맥의 반복적인 접촉, 감염 및 쇼크에 따른 기관 점막의 관류저하, 스테로이드 투여, 방사선치료가 알려져 있다[2-4].

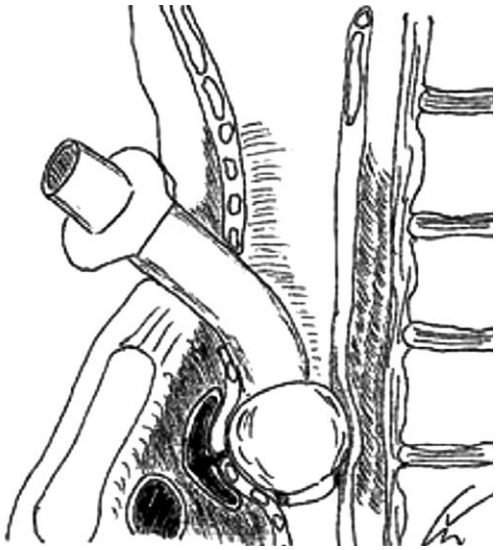

Fig. 2. Temporary control of hemorrhage using cuff hyperinflation. Modified from Dyer RK, Fisher SR[8] with permission of Elsevier.

기관무명동맥루가 의심되는 대량 출혈이 있을 경우, 단계적인 응급처치를 통해 환자를 안정시킨 후 수술실로 보내야 한다. 가장 우선적인 응급처치는 기관절개튜브 커프의 과다팽창이며, 성공률이 85%로 보고되었다(Fig. 2)[3]. 커프의 압력을 통하여 전방의 무명동맥을 압박 지혈할 수 있고, 튜브를 원래 위치에서 약간 빼주는 것이 도움이 된다. 본 증례에서는 이 방법으로 응급 지혈에 성공하였다. 그럼에도 불구하고 출혈이 지속될 경우, 다음 단계로 커프가 있는 기관내관을 경구로 삽관하여, 앞으로 빠져나온 기관절개튜브의 후방을 통과한 후 커프를 팽창시키는 조작이 도움이 될 수 있다(Fig. 3)[2]. 출혈이 지속된다면, 마지

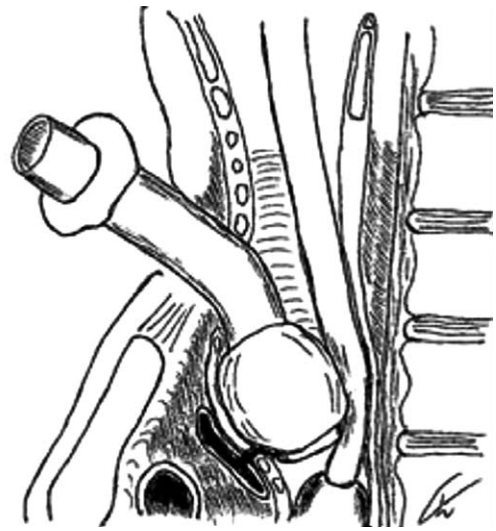

Fig. 3. Temporary control of hemorrhage using cuffed endotracheal tube. It is of note that the tracheostomy tube is partially withdrawn and the cuff of the endotracheal tube is located distal to the tip of the tracheostomy tube. Modified from Dyer RK, Fisher SR[8] with permission of Elsevier.

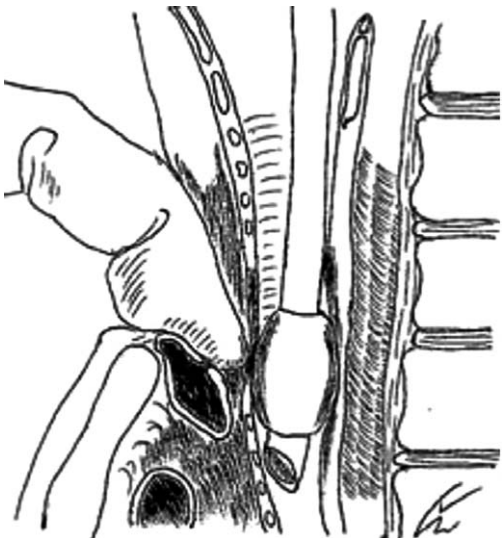

Fig. 4. Temporary control of hemorrhage using the Utley maneuver. It is of note that digital pressure to the innominate artery is directed to the manubrium sterni. Modified from Dyer RK, Fisher SR[8] with permission of Elsevier.

막 수단으로 Utley 조작을 고려해야 한다[5]. 이 술기는 튜브를 완전히 제거하고, 기관절개창을 통해 삽입한 집게손가락 끝으로 무명동맥 위치로 생각되는 지점을 복장뼈자루(manubrium sterni) 방향으로 압박하는 것이다(Fig. 4). 성공률은 89%로 보고되었고, 수술실에서 혈관을 확보할 때까지 압박을 유지하는 것이 중요하다[3].

진단기법의 선택에는 활력징후를 고려해야 한다. 불안정할 경우, 수술실에서 기관지경술을 통해 진단하고 바로 수술해야 한다[2,3]. 반면, 활력징후가 안정적인 경우에는 본 증례와 마찬가지로, 혈관조영술 또는 컴퓨터단층촬영 시행 후 수술 여부를 결정할 수 있다. 수술기법은 혈관의 결찰 및 절제를 통해 무명동맥 혈류를 차단하는 방식과 우회술 및 결손부위의 재건을 통해, 혈류를 보존하는 방식으로 나뉘어지며, 특정 수술방식의 우수성에 대해서는 논란이 있다[3,6]. 진단 및 수술 과정에서도 출혈이 지속될 수 있으므로, 수액 공급 및 수혈을 통해 쇼크를 방지해야 한다[7].

소아 응급환자를 진료하는 의료진은 기관절개술을 시행한 환자에서 드물지만 치명적인 대량 출혈을 초래할 수 있는 기관무명동맥루에 대한 지식을 갖추고, 응급상황에서 신속하고 단계적으로 대처함으로써 환자를 안정시켜야 한다. 본 증례에서, 의료진은 기관절개튜브 커프를 과다팽창시키는 방법을 통해 기관무명동맥루에 의한 박동성 출혈에 대하여 응급처치를 시행하였다. 이후 활력징후가 안정된 상태에서 컴퓨터단층촬영을 통해 기관무명동맥루 병소를 확인하였고, 이는 수술을 통한 확정적 치료로 연결되었다.

REFERENCES

1. Delaney A, Bagshaw SM, Nalos M. Percutaneous dilatational tracheostomy versus surgical tracheostomy in critically ill patients: a systematic review and meta-analysis. Crit Care 2006;10:R55.
2. Wright CD. Management of tracheoinnominate artery fistula. Chest Surg Clin N Am 1996;6:865-73.
3. Jones JW, Reynolds M, Hewitt RL, Drapanas T. Tracheo-innominate artery erosion: successful surgical management of a devastating complication. Ann Surg 1976;184:194-204.
4. Fernandez-Bussy S, Mahajan B, Folch E, Caviedes I, Guerrero J, Majid A. Tracheostomy tube placement: early and late complications. J Bronchology Interv Pulmonol 2015;22:357-64.
5. Utley JR, Singer MM, Roe BB, Fraser DG, Dedo HH. Definitive management of innominate artery hemorrhage complicating tracheostomy. JAMA 1972;220:577-9.
6. Gasparri MG, Nicolosi AC, Almassi GH. A novel approach to the management of tracheoinnominate artery fistula. Ann Thorac Surg 2004;77:1424-6.
7. Thorp A, Hurt TL, Kim TY, Brown L. Tracheoinnominate artery fistula: a rare and often fatal complication of indwelling tracheostomy tubes. Pediatr Emerg Care 2005; 21:763-6.
8. Dyer RK, Fisher SR. Tracheal-innominate and tracheal-esophageal fistulas. In: Wolfe WG, editor. Complications in thoracic surgery. St. Louis (MO): Mosby-Year Book; 1992. p. 298.