

CASE REPORT

내시경 배액술 후 호전된 식도 중복 낭종 출혈 1예

한인섭, 김광하, 이성준, 이봉은, 이호석¹, 김영대¹

부산대학교 의학전문대학원 내과학교실, 흉부외과학교실¹

A Case of Hemorrhage of an Esophageal Duplication Cyst Improved by Endoscopic Drainage

In Sub Han, Gwang Ha Kim, Seong Jun Lee, Bong Eun Lee, Hoseok I¹ and Yeong Dae Kim¹

Departments of Internal Medicine and Thoracic and Cardiovascular Surgery¹, Pusan National University School of Medicine, Busan, Korea

Esophageal duplication cyst is a rare congenital gastrointestinal malformation. It is the second most common duplication cyst following small bowel duplication cyst in the gastrointestinal tract. Patients with an esophageal duplication cyst are generally asymptomatic; however, some patients may present the following symptoms: dysphagia, chest pain, stridor, unproductive cough, and epigastric discomfort by compression of the surrounding structures. Surgical removal is the treatment of choice in symptomatic cases and can be considered in asymptomatic cases if they are at risk for developing complications, such as ulceration or perforation. Herein, we report a case of hemorrhage of an esophageal duplication cyst, which was improved by endoscopic drainage. (*Korean J Gastroenterol* 2017;69:363-367)

Key Words: Esophagus; Cyst; Endoscopic ultrasonography; Drainage

서론

식도 중복 낭종은 위장관 중복 낭종 중에서 소장 중복 낭종에 이어 두 번째로 흔한 중복 낭종이지만, 전체 발병률은 0.01%로 매우 드문 선천성 위장관 기형이다.¹ 대부분은 무증상이지만 낭종의 주변 구조물에 따라 삼킴곤란, 흉통, 헛창, 객담을 동반하지 않는 기침, 심와부 불편감 등이 나타날 수 있고, 흔하진 않지만 부정맥, 출혈 등도 동반될 수 있다.² 증상이 있는 경우에는 수술적 치료가 최적의 치료법이며, 비록 증상이 없더라도 궤양 혹은 천공의 발생 가능성이 있는 경우에는 수술적 제거를 고려해볼 수 있다.³ 저자들은 흉부 불편감으로 응급실에 내원하여 식도 파열로 오인되어 응급 수술을 받고, 이후에도 증상이 지속되어 내시경 배액술을 통해 증상의 호전을 보인 식도 중복 낭종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

증례

51세 여자가 내원 1일 전 양주 2잔을 마시고 20분 뒤에 갑자기 발생한 호흡곤란과 흉부 불편감으로 인근 병원으로 이송되었다. 해당 병원에서의 흉부 단층화 촬영 검사(computed tomography, CT)에서 식도 파열 혹은 식도 박리증이 의심되어 추가 검사 및 응급 수술을 위해 본원으로 전원되었다. 환자는 감상선기능저하증과 고혈압으로 약물치료를 받고 있었고, 흡연은 하지 않았으나 평소 양주 반 병을 일주일에 2회 정도 음주하였다. 전원 당시 활력징후는 혈압 130/80 mmHg, 맥박수 76회/분, 체온 36.6℃였다. 급성 병색을 보였으나 의식은 명료하였고, 복부 검사와 두경부, 흉부 및 사지의 신체적 검사에서 특이한 소견은 관찰되지 않았다. 내원 시 시행한 혈액 검사는 혈색소 11.8 g/dL, 백혈구 13,630/mm³ (호중구 92.3%, 림프구 4.8%), 혈소판 240,000/mm³, aspartate aminotransferase

Received March 20, 2017. Revised May 6, 2017. Accepted May 12, 2017.

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

Copyright © 2017. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 김광하, 49241, 부산시 서구 구덕로 179, 부산대학교 의학전문대학원 내과학교실 및 부산대학교병원 의생명연구원

Correspondence to: Gwang Ha Kim, Department of Internal Medicine, Pusan National University School of Medicine and Biomedical Research Institute, Pusan National University Hospital, 179 Gudeok-ro, Seo-gu, Busan 49241, Korea. Tel: +82-51-240-7869, Fax: +82-51-244-8180, E-mail: doc0224@pusan.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

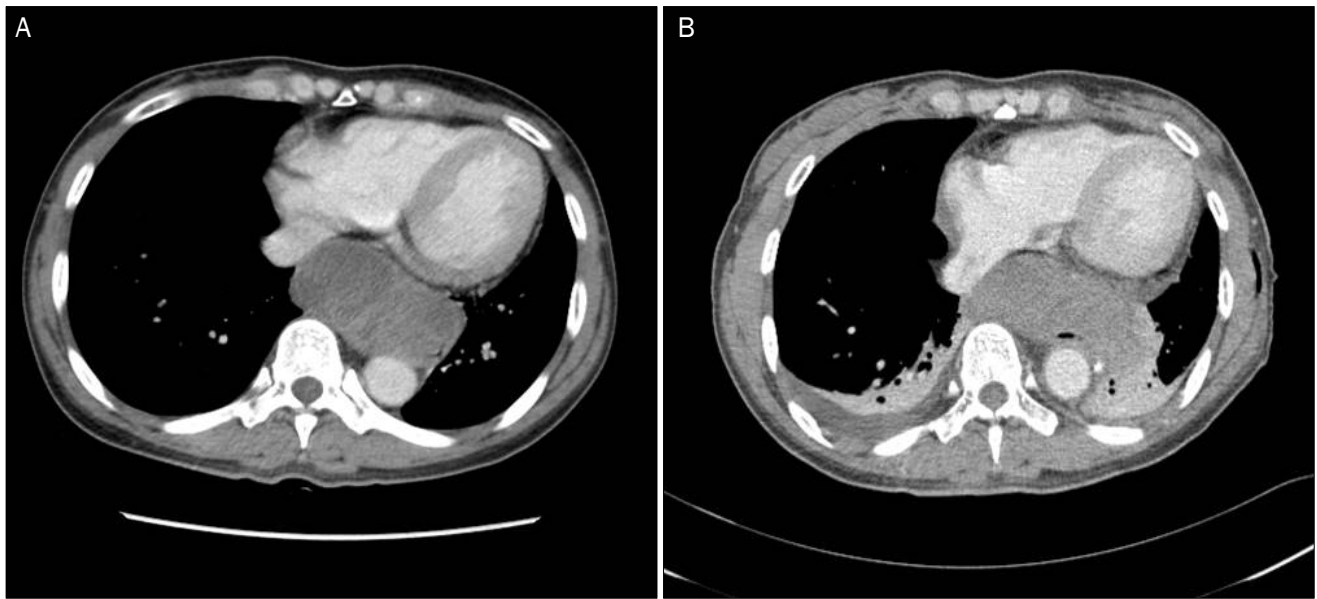


Fig. 1. Chest computed tomography (CT). (A) Initial chest CT. A large cystic mass with inner high density suggesting hematoma is observed at the posterior mediastinum, and this mass compresses the lower esophagus. (B) Follow-up chest CT after operation. Previous cystic mass is still observed, but with slightly reduced size.

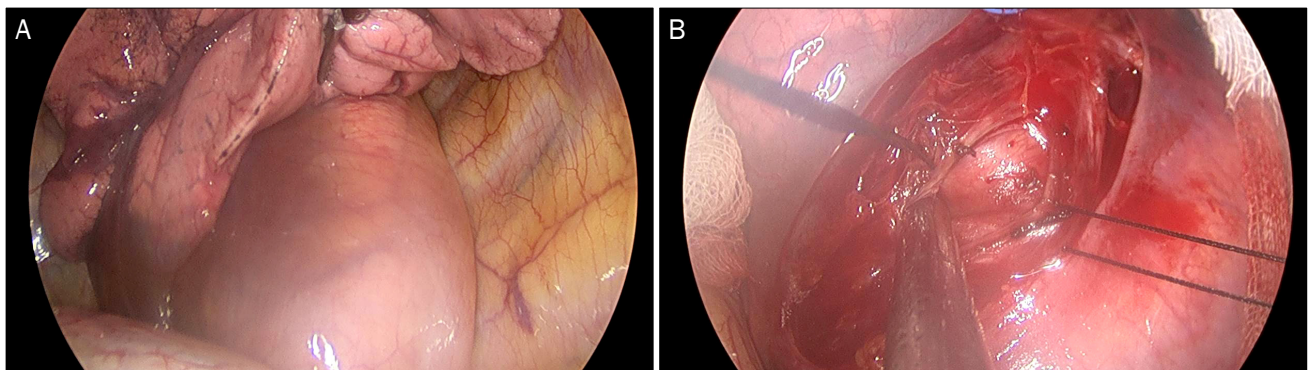


Fig. 2. Emergent intra-operative thoracoscopy. (A) Mediastinum is clear, and the external surface of the esophagus is intact. However, the esophagus is markedly swollen. (B) After incision of the esophagus, a large amount of hematoma is found in the esophageal wall, but the esophageal muscular, submucosal, and mucosal layers are intact.

18 IU/L, alanine aminotransferase 11 IU/L, 혈액요소질소 14.1 mg/dL, 크레아티닌 0.75 mg/dL, C-반응성 단백질 0.14 mg/dL였다. 혈액응고 검사에서 프로트롬빈 시간과 활성부분 프로트롬빈 시간은 각각 11.2초(international normalized ratio 0.97)와 29.2초로 정상 범위였다. 타병원 흉부 CT에서는 식도를 압박하는 8.2×3.3 cm 크기의 낭종성 병변이 후종격동(posterior mediastinum)에서 관찰되었고, 식도 내부에도 비대칭적인 식도 벽의 두꺼워짐 소견이 관찰되었으며 이러한 두 병변은 서로 연결된 것처럼 보였다(Fig. 1A). 또한 낭종성 병변의 내부에는 고밀도(hyperdense) 영역이 관찰되었으며, 이는 출혈에 의한 것으로 판단되었다. 환자는 본원 응급실 내원 후 흉부외과에 의뢰되었고, 식도 파열 가능성이 높을 것으로 판단되어 입원 1일째 응급 수술을 받았다. 수술 당시 식

도의 근육층, 점막하층 및 점막층의 손상은 없었으나 식도 벽 내에 다수의 혈종이 확인되어 제거하고 수술은 종료되었다(Fig. 2). 추적관찰을 위해 입원 3일째 흉부 CT를 시행하였고, 식도 바깥쪽에 위치하던 병변은 수술 이후 크기의 감소를 보였으나 전반적으로 처음의 영상 검사와 비슷한 소견으로(Fig. 1B), 식도 파열이 아니라 식도 중복 낭종 내 출혈의 가능성이 높았다. 수술 이후에도 흉부 불편감은 호전되지 않았고, 혈액 검사에서 지속되는 백혈구 증가증 및 C-반응성 단백질의 상승 등으로 자세한 평가를 위해 본원 소화기내과에 의뢰되었다. 입원 5일째 상부 위장관 내시경 검사를 시행하였고, 중부 식도에 검자로 압박 시 부드러운(cushion sign 양성), 6 cm 크기의 상피하 병변이 확인되어(Fig. 3A) 자세한 평가를 위해 내시경 초음파 검사(endoscopic ultrasonography, EUS)를 시

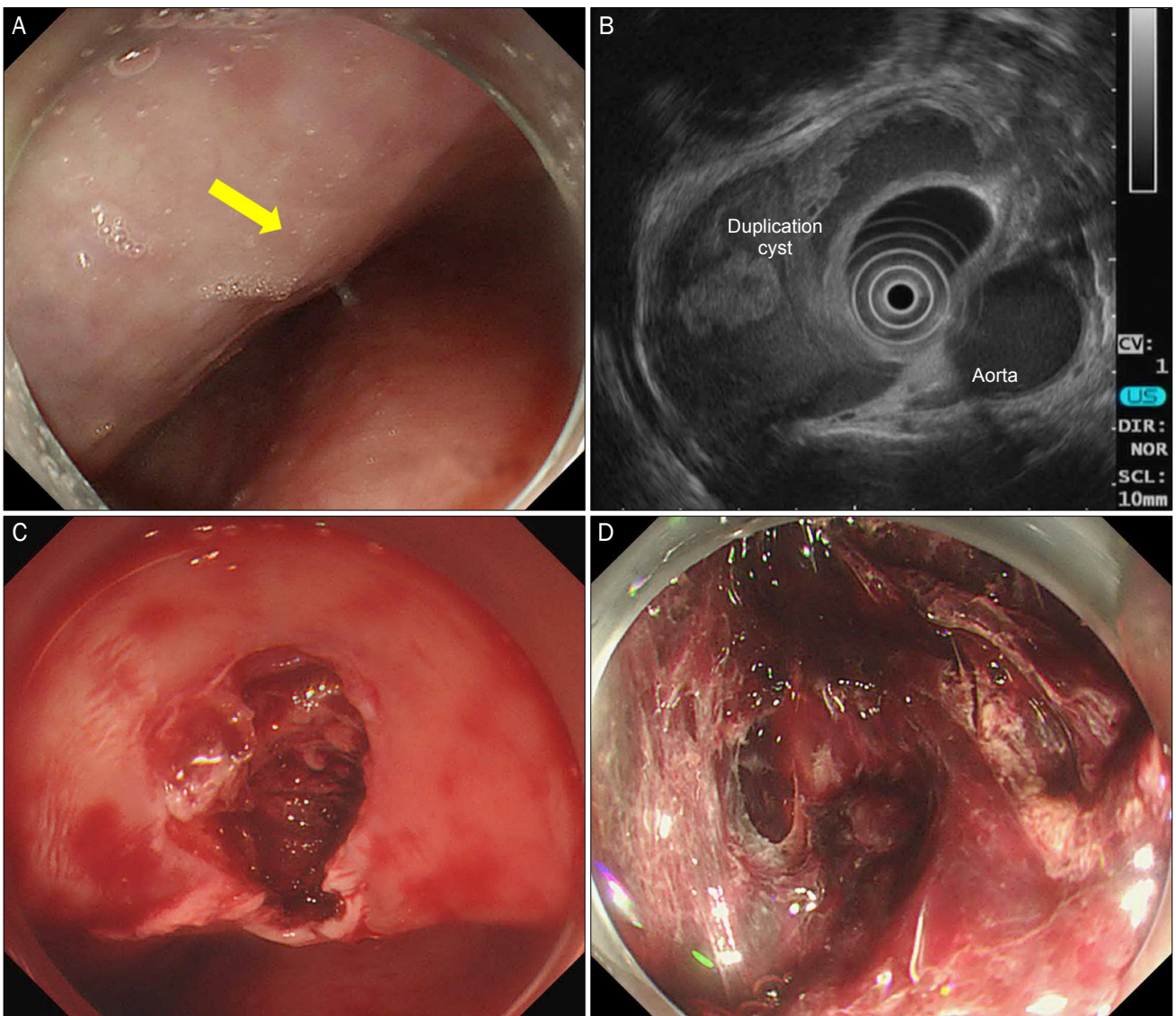


Fig. 3. Endoscopic drainage. (A) A subepithelial lesion with positive cushion sign (arrow) is observed at the lower esophagus. (B) On endoscopic ultrasonography, the lesion is a 7.6 cm-sized cystic lesion located at the muscular layer of the esophagus, and a large amount of hyperechoic floating materials are observed inside the cystic lesion. (C) Mucosal and submucosal incision is performed using a dual knife. (D) A large amount of hematoma and pus are found inside the lesion. These hematoma and pus are removed via repetitive endoscopic aspiration and saline washing.

행하였다. EUS에서 고유근층에서 기시하는 7.6 cm 크기의 격벽이 있는 낭종성 병변이 관찰되었으며, 내부에는 지저분한 고에코의 부유 물질들이 있었다(Fig. 3B). 이러한 소견을 토대로 출혈과 감염이 동반된 식도 낭종의 가능성이 가장 크다고 판단되어 증상 완화를 위해 낭종성 병변의 표면을 dual knife (Olympus, Tokyo, Japan)를 사용하여 절개한 후에 낭종 내의 혈괴와 지저분한 내용물을 흡인하였다(Fig. 3C, D). 이후 생리식염수로 수차례 씻은 뒤 배액술로 인한 출혈, 천공 등의 기타 합병증이 없음을 확인한 후 시술을 종료하였다. 내시경 배액술 후 정도의 종격기종 및 피하기종이 발생하였으나, 산소치료 및 안정 등의 보존술로 호전되었고, 시술 2일째 식도

조영술 시행 시 천공 소견은 관찰되지 않았다. 시술 7일째 추적 상부 위장관 내시경 검사 시 이전 절개 부위는 아문 상태였고, 식도내강으로의 종창 정도는 시술 전에 비해 현저히 줄어들었다. EUS에서 낭종 병변 내 찌꺼기들은 현저히 줄어든 상태이나, 식도 벽 외측의 낭종 부분은 여전히 관찰되었다. 식이 후에도 불편감은 없었고, 혈액 및 영상 검사에서도 더 이상 이상 소견은 관찰되지 않아 시술 후 19일째 퇴원하였다. 환자는 퇴원 4개월 후까지 증상 재발은 없었으며, 추적 EUS 및 CT에서 여전히 낭종성 병변이 관찰되었으나 크기는 3.7 cm 정도로 감소되었으며, 내부에서는 이전에 관찰되던 고에코의 부유 물질은 더 이상 관찰되지 않았다(Fig. 4).

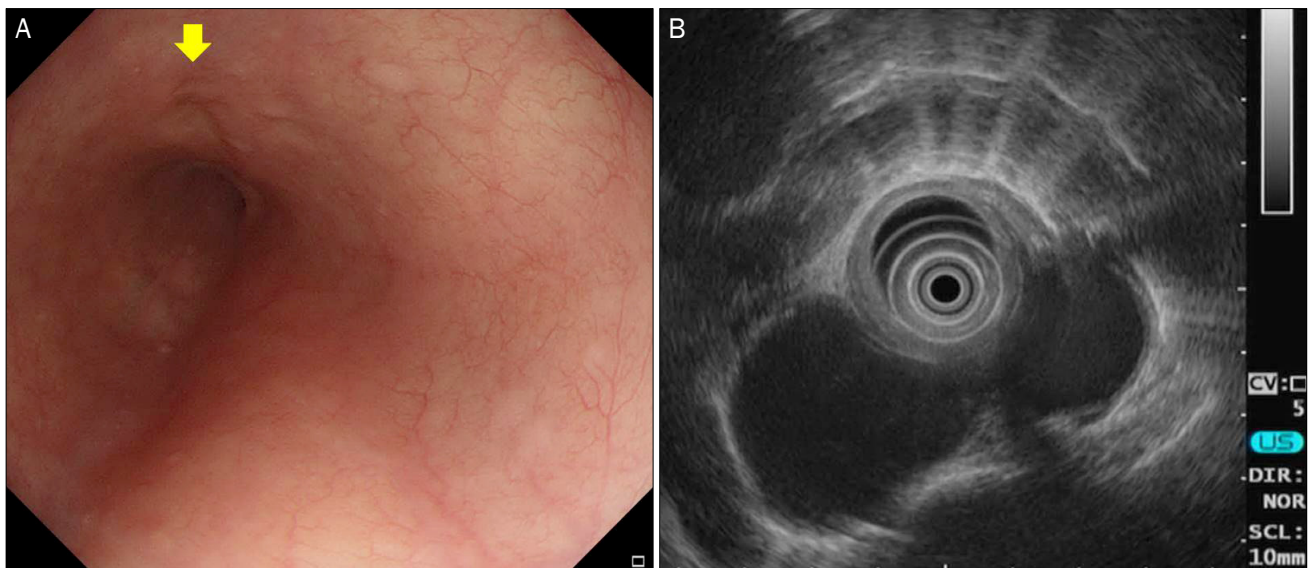


Fig. 4. Follow-up endoscopy and endoscopic ultrasonography (EUS) at 4 months after endoscopic drainage. (A) On endoscopy, the previous sub-epithelial lesion is markedly decreased, and the incision site is completely healed (arrow). (B) On EUS, the cystic lesion is still observed at the muscular layer of the esophagus, but its size decreases to 3.7 cm and the previous hyperchoic floating materials are not seen any more.

고 찰

식도 중복 낭종은 매우 드문 선천성 기형으로, 태아의 발생 과정에서의 이상으로 나타난다. 태생기 3-4주 혹은 5-8주 때 배아 전장(embryonic forgut)의 분할 과정의 이상에서 발생하는 것으로 알려져 있으나 정확한 원인에 대해서는 아직 구체적으로 밝혀진 바가 없다.⁴ 식도 중복 낭종의 2/3는 하부 식도에서, 1/3은 상부 혹은 중부 식도에서 발견되며, 특히 우측의 후하 종격동에 위치하는 경우가 많다.⁵

다른 위장관 중복 낭종에 비해 식도 중복 낭종은 증상이 잦은 편이라고 알려져 있지만 대개의 식도 중복 낭종은 무증상이 많다. 증상은 식도 중복 낭종이 위치한 주위 구조물의 압박에 의해 발생하며 낭종의 크기와 위치에 따라 다양한 임상증상을 보인다.⁶ 상부 식도에 낭종이 있는 경우 협착증이나 객담을 동반하지 않는 기침이 나타날 수 있고, 중부 식도나 하부 식도에 있는 경우에는 삼킴곤란, 심와부 불편감, 흉통, 구토 등을 유발할 수도 있다. 드물지만 본 증례와 같이 출혈과 같은 합병증의 발생으로 증상이 나타날 수도 있다.⁷

식도 중복 낭종의 진단을 위해 여러 가지 영상 기법들이 사용되고 있으며, 최근에는 기타 질환과의 감별에 EUS가 유용한 것으로 알려져 있다.^{8,9} 상부 위장관 내시경 검사는 낭종성 병변이 외부 압박 혹은 상피화 병변으로만 관찰되기 때문에 지방종, 평활근종 혹은 위장관 간질종양 등과 같은 다른 상피화 병변과의 감별이 필요하다. 반면 EUS는 식도층 내 병변의 위치, 내부 성상을 확인할 수 있어 병변에 대한 비교적 정확한 정보를 얻을 수 있고, 내부 성상을 토대로 출혈 등과

같은 합병증 동반 여부도 알 수 있다.¹⁰ EUS하 세포흡인술은 시술에 의한 2차 감염을 유발할 수 있어 시행여부에 대해서는 의견이 불분명한 상태이다.¹¹ CT는 병변의 위치를 확인하고 수술 가능 여부에 관한 정보를 확인할 수 있으며, 그 외 자기 공명영상검사도 진단하는 데 도움을 줄 수 있다.

증상이 있는 식도 중복 낭종의 치료는 수술로 제거하는 것이 원칙이다. 증상이 없는 경우에도 궤양이나 천공과 같은 합병증이 발생할 가능성이 있다면 수술적 치료를 고려해볼 수 있다. 하지만 합병증의 발생이 적을 경우에는 수술적 치료 이후에 역류성 식도염과 같은 장기간의 합병증이 발생할 수도 있으며, 대략 1% 정도의 수술로 인한 사망률도 있기 때문에 증상이 없는 식도 중복 낭종에서의 수술적 치료는 아직 명확하게 정립된 것은 없다.³ 수술적 치료로는 전통적으로 개흉술을 통한 완전 절제가 있으며, 최근에는 비디오 흉강경을 이용한 절제술이 많이 시행되고 있다.^{8,9} 내시경 기술이 발달하면서 내시경 시술의 성공적인 사례가 보고되고 있는데, 2012년 Ivekovic 등은 고형식에 대한 삼킴곤란을 호소하는 2명의 환자에서 IT-knife (Olympus, Tokyo, Japan)로 천공을 만들어 낭종의 내강에서 식도내강으로 교통시켜 절개 이후 증상 호전을 보인 증례를 보고하였고,¹² 2015년 Mou 등은 점진적으로 심해지는 증상을 가진 식도 중복 낭종의 환자에서 내시경 점막절제술을 시행하고 이후 무수 알코올을 도포하여 성공적으로 치료한 사례를 보고한 바 있다.¹³ 내시경 치료는 수술과 달리 침습 정도가 적고 전신마취에 따른 부작용이 없으며 회복 기간이 빠른 장점이 있지만 내시경 치료의 성공사례가 많지 않아 아직 추가 연구가 필요하다.

저자들은 갑자기 발생한 호흡 곤란과 흉부 불편감으로 내원한 후 식도 파열로 오인되어 외과적 수술을 받은 출혈과 감염이 동반된 식도 중복 낭종 환자에서 내시경 배액술로 증상이 호전된 예를 경험하였으며, 식도 중복 낭종의 악성화 가능성이 매우 낮다는 점을 감안한다면 증상을 동반한 식도 중복 낭종의 치료에 내시경 시술이 도움이 될 수 있을 것으로 생각된다.

REFERENCES

1. Liu R, Adler DG. Duplication cysts: diagnosis, management, and the role of endoscopic ultrasound. *Endosc Ultrasound* 2014;3: 152-160.
2. Whitaker JA, Deffenbaugh LD, Cooke AR. Esophageal duplication cyst. Case report. *Am J Gastroenterol* 1980;73:329-332.
3. Salo JA, Ala-Kulju KV. Congenital esophageal cysts in adults. *Ann Thorac Surg* 1987;44:135-138.
4. Nobuhara KK, Gorski YC, La Quaglia MP, Shamberger RC. Bronchogenic cysts and esophageal duplications: common origins and treatment. *J Pediatr Surg* 1997;32:1408-1413.
5. Bhatia V, Tajika M, Rastogi A. Upper gastrointestinal submucosal lesions—clinical and endosonographic evaluation and management. *Trop Gastroenterol* 2010;31:5-29.
6. Ildstad ST, Tollerud DJ, Weiss RG, Ryan DP, McGowan MA, Martin LW. Duplications of the alimentary tract. Clinical characteristics, preferred treatment, and associated malformations. *Ann Surg* 1988;208:184-189.
7. Bowton DL, Katz PO. Esophageal cyst as a cause of chronic cough. *Chest* 1984;86:150-152.
8. Cioffi U, Bonavina L, De Simone M, et al. Presentation and surgical management of bronchogenic and esophageal duplication cysts in adults. *Chest* 1998;113:1492-1496.
9. Geller A, Wang KK, DiMagno EP. Diagnosis of foregut duplication cysts by endoscopic ultrasonography. *Gastroenterology* 1995; 109:838-842.
10. Diehl DL, Cheruvattath R, Facktor MA, Go BD. Infection after endoscopic ultrasound-guided aspiration of mediastinal cysts. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2010;10:338-340.
11. Wildi SM, Hoda RS, Fickling W, et al. Diagnosis of benign cysts of the mediastinum: the role and risks of EUS and FNA. *Gastrointest Endosc* 2003;58:362-368.
12. Ivekovic H, Jouret-Mourin A, Deprez PH. Endoscopic fenestration of esophageal duplication cysts. *Endoscopy* 2012;44 Suppl 2 UCTN:E404-E405.
13. Mou Y, Wen D, Liu Q, et al. Endoscopic resection of an esophageal duplication cyst with spraying of anhydrous alcohol. *Endoscopy* 2015;47 Suppl 1 UCTN:E348-E349.