DOI: 10.4046/trd.2011.70.3.261
ISSN: 1738-3536(Print)/2005-6184(Online)
Tuberc Respir Dis 2011;70:261-265
Copyright©2011. The Korean Academy of Tuberculosis and Respiratory Diseases. All rights reserved.

Case Report

원인불명의 담즙흉 1예

충북대학교 의과대학 [1]내과학교실, [2]흉부외과학교실
성문혁[1], 김성무[1], 유숙희[1], 박우리[1], 안진영[1], 최강현[1], 이기만[1], 김시욱[2]

A Case of Cholethorax Developed by Unknown Cause

Mun Hyuk Seong, M.D.[1], Sung Moo Kim, M.D.[1], Suk Hee Yoo, M.D.[1], Woo Ri Park, M.D.[1], Jin Young An, M.D.[1], Kang Hyeon Choe, M.D.[1], Ki Man Lee, M.D.[1], Si Wook Kim, M.D.[2]
Departments of [1]Internal Medicine, [2]Thoracic and Cardiovascular Surgery, Chungbuk National University College of Medicine, Cheongju, Korea

Cholethorax is a bilious pleural effusion caused by a pleurobiliary fistula or leakage of bile into the pleural space. Most cases of cholethorax arise from a complication of abdominal trauma, hepatobiliary infection, or invasive procedures or surgery of hepatobiliary system. However, we experienced a case of a patient with cholethorax of unknown origin. There was no evidence of pleurobiliary fistula or leakage of bile from the hepatobiliary system although we examined the patient with various diagnostic tools including chest and abdominal computed tomography, endoscopic retrograde cholangiopancreatography, tubography, bronchofiberscopy, hepatobiliary scintigraphy and video-assisted thoracoscopic surgery. Herein we report a case of cholethorax for which the specific cause was not identified. The patient was improved by percutaneous drainage of pleural bile.

Key Words: Bile; Biliary Fistula; Pleural Effusion; Diaphragm

서 론

담즙흉(cholethorax, biliothorax)은 담도계와 흉막강과의 비정상적인 연결로 인한 흉강담도루(pleurobiliary fistula)에 의해 담즙이 흉막강 내에 고이는 드문 질환으로 주로 간이나 담도계의 감염, 복부 외상, 간이나 담도계 수술 혹은 침습적 시술 등의 합병증으로 발생하는 질환이다[1-4]. 또한 담도계와 기관지가 연결되어 기관지담도루(bronchobiliary fistula)가 형성되면 진단적 특징인 객담즙(biliptysis)이 나오게 되며[5], 담즙흉은 혈청 총빌리루빈치보다 흉수의 총빌리루빈치가 높을 때 진단할 수 있다[6]. 기관지담관루의 국내보고는 약 10예 이상 있으나[7] 담즙흉은 1예의 국내보고가 있었다[8]. 기관지담도루나 담즙흉은 대부분은 선행원인이 있지만, 저자들은 원인이 불명확하고 또한 누공을 찾기 위한 여러 가지 검사에도 불구하고 누공이나 담즙누출을 찾을 수가 없었던 원인불명의 담즙흉 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Address for correspondence: **Ki Man Lee, M.D.**
Division of Pulmonology, Department of Internal Medicine, Chungbuk National University Hospital, 410, Sungbong-ro, Heungduk-gu, Cheongju 361-711, Korea
Phone: 82-43-269-6353, Fax: 82-43-269-3252
E-mail: kimlee@chungbuk.ac.kr
Received: Oct. 22, 2010
Accepted: Dec. 17, 2010

증 례

환 자: 72세, 남자

주 소: 내원 6시간 전부터 발생한 우상복부 통증 및 호흡곤란

과거력 및 가족력: 10년 전 당뇨병 진단받았으나 투약 없이 지냈다.

사회력: 수년 전부터 하루에 막걸리 1병 정도를 마셨으며, 20갑년의 흡연력이 있었다.

현병력: 내원 약 6시간 전부터 우하부 흉통 및 호흡곤란이 발생하여 본원 응급실로 왔다. 통증은 서서히 시작되었으며 지속적으로 있었고, 흡기 시와 상체를 움직일 때

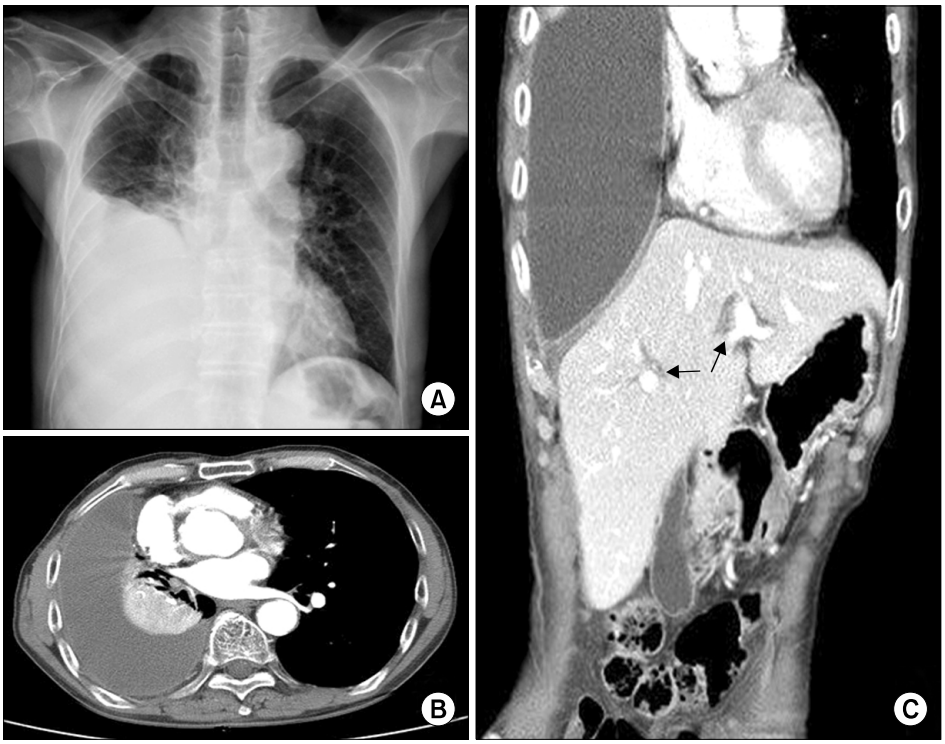

Figure 1. (A) Chest X-ray shows right pleural effusion. (B) Chest CT scan shows large amount of pleural effusion with passive atelectasis. (C) Abdomen CT scan shows mild intrahepatic duct dilatation (arrows). CT: computer tomography.

악화되었다. 환자는 이전에 비슷한 종류의 통증이나 호흡곤란은 없었다고 하였으며, 약 1개월 전 화장실에 다녀오다 미끄러져 앞으로 넘어진 것 이외의 외상은 없었고 당시에는 복부나 흉부의 통증을 기억하지 못하였다.

진찰소견: 응급실 내원 당시 혈압은 160/90 mm Hg, 맥박 74회/분, 호흡수 22회/분이었고 체온은 정상이었다. 의식은 명료하였고 급성병색을 보였다. 이학 검사에서 빈혈이나 황달의 소견은 보이지 않았다. 우측 호흡음이 감소되어 있었고, 복부는 전체적으로 편평하고 부드러웠으며 촉진 시 압통이나 반발통은 없었다.

검사실 소견: 내원 당시 말초 혈액검사에서 백혈구 8,200/mm^3 (호중구 77.2%), 혈색소 11.9 g/dL, 혈소판 209,000/mm^3이었고 AST 14 IU/L, ALT 9 IU/L, γ-GT 19 IU/L, ALP 185 IU/L, 총빌리루빈 0.33 mg/dL, 아밀라제 33 IU/L, 리파제 49 IU/L, 총 단백질 6,700 mg/dL, 알부민 3.9 g/dL, BUN 15 mg/dL, creatinine 1.04 mg/dL, LDH 274 IU/L. C-반응단백(CRP) 0.46 mg/dL였다. 실내공기에서 측정한 동맥산소포화도는 96%로 정상이었다.

방사선검사 소견: 내원 시 검사한 흉부 X-선 검사에서 우측 흉수 소견(Figure 1A)을 보였고 흉부 전산화 단층촬영 검사에서 다량의 우측흉수와 수동적 무기폐가 관찰되었지만 골절이나 외상의 흔적은 없었다(Figure 1B). 복부

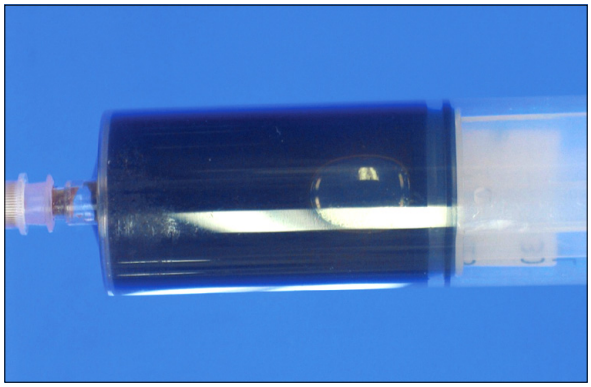

Figure 2. Percutaneously needle aspirated pleural effusion was dark greenish colored fluid.

전산화 단층촬영에서도 경도의 간내담관확장 소견을 보였으나 그 외 복강 내 병변은 없었다(Figure 1C).

임상경과 및 추가 검사: 흉수검사는 pH 7.5, 단백질 9,470 mg/dL, 포도당 1 mg/dL, LDH 5,142 mg/dL의 삼출액 소견으로 아밀라제 69 IU/L, 아데노신탈아미노효소(adenosine deaminase, ADA)는 125 IU/L였으며, 흉수 세포 검사는 호중구 45%, 림프구 13%, 조직구 42%였다. 흉수 색깔이 짙은 녹색을 띠는 혼탁한 액체(Figure 2)로 담즙흉을 의심하여 측정한 흉수의 총빌리루빈은 11.7

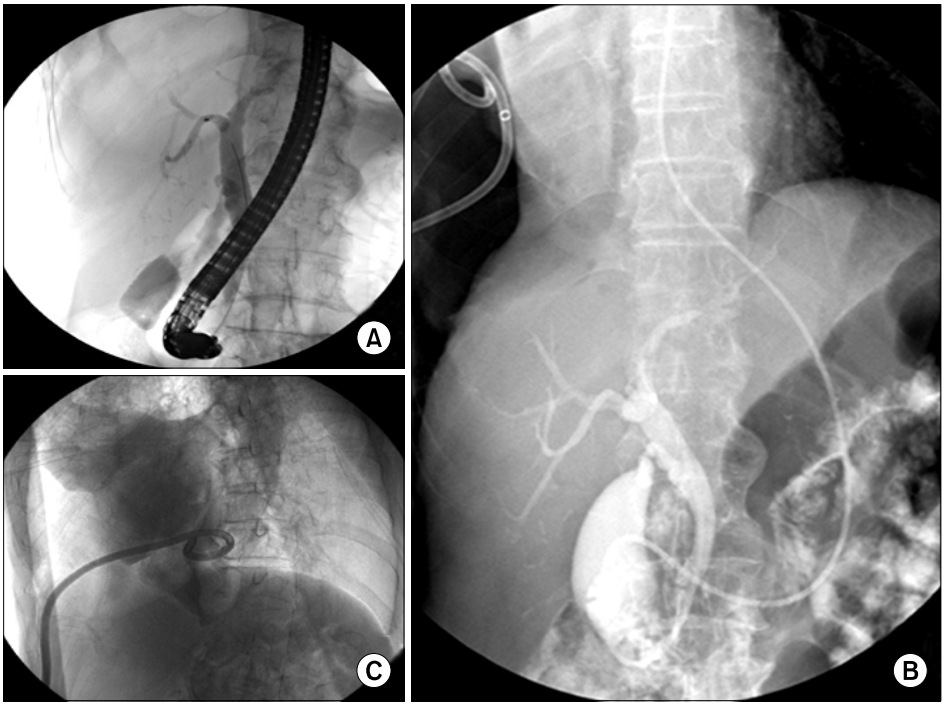

Figure 3. (A) The retrograde cholangiopanrceatography shows no evidence of stricture, obstruction of biliary tree or leakage of contrast media. (B) Retrograde cholangiography shows no evidence of biliary tree abnormality or leakage of contrast media. (C) Contrast media injected into pleural cavity via Pigtail cathether. There is no evidence of fistula or leakage of contrast media into extrapleural space.

mg/dL로 담즙흉에 합당하였다. 추가적으로 흉수에서의 담즙산은 1.4 umol/L였다. 흉수의 세균 배양 검사에서는 3일 후 *Staphylococcus hominis*가 배양되었다. 흉수를 제거하기 위해 12 French Pigtail 카테터를 경피적으로 흉막강 내에 삽관하였고 첫 24시간 동안 약 1,100 mL 정도의 짙은 녹색 담즙이 배액되었다.

입원 1일 후 실시한 내시경 역행 췌담관 조영술(endoscopic retrograde cholagiopanceatography, ERCP)에서 담즙누출이나 누공의 소견은 없었고 정상이었으나 일단 내시경적 유두괄약근 절개술을 실시하고 담도배액관를 유지하였다(Figure 3A). 입원 3일째 담도배액관을 통한 담관조영술을 시행하였으나 담도 내의 이상소견이나 조영제의 누출 소견도 없었다(Figure 3B). 입원 후 흉막강 카테터를 통해서 하루에 200 mL 내지 400 mL 정도의 흉수가 계속 배출되면서 흉통과 호흡곤란은 호전되었다. 객담즙은 없었으나 기관지담도루 등 기관지 내 병변을 확인하기 위해 입원 7일째 시행한 기관지내시경에서도 우하부 기관지가 흉수 압력에 의한 것으로 보이는 경도의 압박소견 이외에 기관지 내 병변은 없었다. 입원 9일째 흉막강 내 카테터를 통해서 조영제를 주입하였으나 조영제가 담도계나 복강 내로 누출된 소견은 보이지 않았다(Figure 3C). 입원 12일째 카테터를 통해서 하루 100 mL 정도만 배액이 되었고 환자의 상태가 현저히 호전되었다. 횡격막

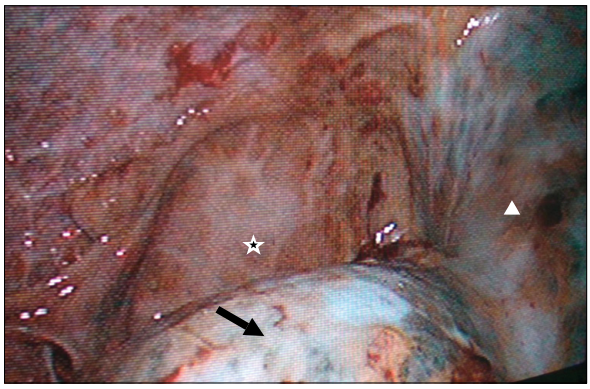

Figure 4. Video assisted thoracic surgery shows severe thickening of pleura with multiple adhesions. Star indicates right diaphragm and bile stained visceral pleura was seen at right upper lobe (triangle) and right lower lobe (arrow).

천공이나 흉강 내 이상소견을 확인하기 위해 시행한 비디오보조 흉강경수술(Video-assisted thoracic surgery, VATS)의 소견은 벽측 및 장측 흉막비후 및 유착소견이 보였고 담즙으로 착색된 흉막이 관찰되었다(Figure 4). 흉막의 조직병리 소견은 비특이적인 만성 염증과 섬유화 소견 외의 특이 소견은 없었다. 입원 25일째 시행한 ^{99m}Tc-diisopropyl iminodiacetic acid (DISIDA) 간담관 섬광조영술(hepatobiliary scintigraphy) 검사도 정상 소견이었다. 담

즙흉의 원인이 밝혀지지는 않았지만 환자의 상태는 호전되었고 배액되는 흉수의 양은 점차 감소하여 입원 28일째 Pigtail 카테터를 제거하였다. 카테터를 제거한 후에도 소량의 흉수는 남아있었고 폐의 팽창은 완전히 이루어지지 않았으나 환자는 별다른 증상없이 입원 32일째 퇴원하였다. 퇴원 1개월 후 외래방문 시 흉통이나 호흡곤란 등의 이상 증상 호소는 없었으나 추적 관찰한 흉부 X-선 검사에서 퇴원 당시보다 우측 흉수가 다소 증가되어 다시 흉수 검사를 시행하였다. 흉수는 담홍색으로 흉수의 검사 결과 총빌리루빈은 1.80 mg/dL (혈청 총빌리루빈 0.37 mg/dL) 이었고, 총단백질 4,522 mg/dL (혈청 총단백질 6.9 g/dL), 포도당 75 mg/dL, LDH 449 IU/dL (혈청 LDH 310 IU/L) 이었으며, ADA는 28.4 IU/L였고 림프구가 95%를 차지하는 삼출액 소견이었으며 결핵균 및 세균은 배양되지 않았다. 환자의 증상은 없었고 담즙흉의 호전 소견은 보이나 흉막유착에 의한 폐의 팽창이 불충분하여 추후 흉막 박피술을 고려하기로 하고 현재 추적 관찰 중이다.

고 찰

담즙흉은 담도계와 흉막강 사이의 누공이나 담도계로부터의 담즙누출에 의해 담즙이 흉막강에 고이는 질환으로 흉수 검사로 흉수의 총빌리루빈이 혈청보다 높은 경우 진단할 수 있다[6]. 선행원인으로는 간 담도계의 감염성 질환이나[1] 복부외상이 흔하나[9-11], 최근에는 간담도계의 수술이나 침습적 시술의 합병증에 의한 보고가 증가하고 있다[3,4,12,13]. 대부분의 보고에서는 담즙흉을 야기하는 선행원인이 있으나 본 증례와 같이 원인이 불명확한 1예가 보고된 바 있다[8].

담즙흉의 원인질환과 담즙의 누출이나 누공을 확인하기 위한 검사로 전산화 단층촬영, 내시경 역행 췌담관 조영술, 경피경 간담도 조영술(percutaneous transhepatic cholangiography)이나 방사선핵종을 이용한 간담관 섬광 조영술 등이 사용된다. 그 외 진단적 혹은 치료적 목적으로 개복술이나 개흉술을 실시하기도 한다. 전산화 단층촬영으로는 간이나 횡격막하 농양 등의 감염성 질환, 외상에 의한 간 열상이나 횡격막 파열 등을 진단하는데 유용하다[7-9]. 누공이나 담즙누출을 확인하기 위하여 내시경 역행 췌담관 조영술이 가장 보편적인 검사로 사용되지만[9-11], 그 외 경피경 간담도 조영술이나 간담관 섬광 조영술 검사를 이용하여 누공이나 담즙누출을 확인하기도 한다[8-10]. 그러나 이러한 검사로도 담즙누출이나 누공을 발견하지 못하는 경우나[2,11] 혹은 원인질환의 치료를 위해 개복술이나 개흉술을 실시하여 농양의 제거, 누공이나 횡격막 파열에 대한 수술을 하기도 한다[2,5,11]. 본 증례에서는 상기 언급한 여러가지 검사에서도 담즙흉의 원인을 알 수가 없었고 누공이나 담즙누출의 소견을 발견할 수가 없었다. 또한 횡격막 파열이나 누공을 확인하기 위해 비디오보조 흉강경 수술을 실시하여도 횡격막 파열이나 누공을 확인할 수가 없었다. 환자는 복부 증상이 없었고 전산화 단층촬영에서 간내 담관의 경도 확장 소견 외에는 이상 소견이 없으므로 개복술은 실시하지 않았다.

결론적으로 본 증례에서 담즙흉의 원인은 환자가 기억하는 1개월 전 심하게 앞으로 넘어지면서 발생한 복부외상에 의한 담즙흉이 발생한 것으로 유추된다. 복부외상이 경미한 경우 담즙흉은 있으나 간기능이 정상 소견을 보일 수가 있고[5], 담즙흉의 유일한 국내보고에서도 본 증례와 유사하게 자동차 사고 이후 외상에 의한 담즙흉의 가능성을 제시하였다[8]. 또한 간 생검 이후 발생한 담즙흉의 보고에서 내시경 역행 췌담관 조영술도 정상이고 부검에서도 누공을 발견하지 못한 경우도 있었다[13]. 이러한 경우 담즙흉이 발생하는 기전은 외상에 의해 일시적으로 생긴 담관내 출혈에 의해 피떡(blood clots)이 형성되고 이로 인해 담관 내의 압력이 증가하면서 횡격막의 미세손상을 통해 담즙이 흉강 내로 누출되거나[5,11], 횡격막의 느슨한 결체조직이 늘어나면서 이들 미세구조를 통하여 음압 상태의 흉막강 내로 담즙이 누출될 수가 있다고 하였다[14]. 본 증례는 담도 확장 소견이 담관 내 출혈에 의한 일시적 압력상승으로 발생하였을 가능성이 있다고 생각된다.

복부외상 후 담즙흉이 발생하는 기간은 평균 14일이며 38일 후에 담즙흉이 발생된 경우도 있어 담즙이 흉강 내로 누출되는 데는 다소 기일이 소요될 수 있다[11]. 그러나 본 증례에서와 마찬가지로 담즙흉이 일단 발생하면 빠르게 흉막비후가 진행한다고 보고되었다[2]. 본 증례의 흉수에서 배양된 *Staphylococcus hominis*는 피부에 상주하는 *Coagulase-Negative Staphylococci*의 일종으로 배양이 되더라도 대부분의 경우 오염에 의한 것이며[15] 담즙흉의 원인균으로 보고된 증례도 없어 흉수 검사 시의 오염에 의한 것으로 생각되나 이차 감염의 가능성도 있을 것으로 생각된다.

담즙흉의 증상은 일반적인 흉막염의 증상과 동일하나 만일 담도계와 기관지의 연결에 의한 기관지담도루가 생기면 특징적 진단 소견인 객담즙이 나타나며, 이 경우 담즙에 의한 기관지 염증 및 괴사성 폐렴 등을 동반하게 되

어 담즙흉에 비해 더욱 중한 경과로 사망률이 높다[7]. 그러나 담즙흉만 있는 경우는 원인질환이나 간 및 췌담도계 손상의 정도에 따라 다양한 예후를 갖는다.

담즙흉의 치료는 원인질환 및 누공의 유무와 위치에 따라 다르며 심한 간 손상이나 간담도계나 횡격막하 농양이나 누공이 있을 경우에는 일반적으로 개흉술이나 개복술이 추천된다[1,2,5,11]. 그러나 본 증례와 같이 간담도계 질환이나 손상이 비교적 경미하고 누공이 없는 경우는 보존적 치료만으로도 호전될 수도 있다. 암 등에 의한 담도협착이 있는 경우는 흉관을 통한 흉수배액과 함께 경피 담도배액 혹은 내시경적 담도 감압술로 호전되었으며[3], 또한 담도협착이 없더라도 담도 감압술이 담도계의 압력을 낮추어 담즙의 흉강 내 이동을 줄여 담즙흉이 호전된다고 보고하였다[11]. 또한 경미한 외상의 경우 흉강 내 가슴관이나 카테터 삽관에 의한 흉수 배액만으로도 환자가 호전됨을 보고하였다[9-11]. 본 증례에서도 원인질환을 찾을 수 없었고 여러 검사를 시행하였음에도 불구하고 담즙누출이나 누공을 찾을 수가 없었으며, 내시경적 유두괄약근 절개술 및 흉막강 내 카테터 삽관으로 흉수를 배액하면서 증상이 호전된 담즙흉 1예를 경험하였기에 이를 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Amir-Jahed AK, Sadrieh M, Farpour A, Azar H, Namdaran F. Thoracobilia: a surgical complication of hepatic echinococcosis and amebiasis. Ann Thorac Surg 1972;14:198-205.
2. Franklin DC, Mathai J. Biliary pleural fistula: a complication of hepatic trauma. J Trauma 1980;20:256-8.
3. Strange C, Allen ML, Freedland PN, Cunningham J, Sahn SA. Biliopleural fistula as a complication of percutaneous biliary drainage: experimental evidence for pleural inflammation. Am Rev Respir Dis 1988;137:959-61.
4. Ichikawa T, Yamada T, Takagi H, Abe T, Ito H, Sakurai S, et al. Transcatheter arterial embolization-induced bilious pleuritis in a patient with hepatocellular carcinoma. J Gastroenterol 1997;32:405-9.
5. Oparah SS, Mandal AK. Traumatic thoracobiliary (pleurobiliary and bronchobiliary) fistulas: clinical and review study. J Trauma 1978;18:539-44.
6. Light RW, Lee G. Textbook of pleural diseases. 2nd ed. London: Hodder Arnold; 2008.
7. Lee SH, Lee KJ, Kim SY, Lee SK, Jung KS, Park BH, et al. Bilioptysis caused by bronchobiliary fistula secondary to sclerosing therapy of liver cyst. Tuberc Respir Dis 2010;69:119-23.
8. Park CS, Lee SJ, Do GW, Oh SY, Cho H, Kim MS, et al. A case of cholethorax following percutaneous transhepatic cholangioscopy. Tuberc Respir Dis 2008;65:131-6.
9. Feld R, Wechsler RJ, Bonn J. Biliary-pleural fistulas without biliary obstruction: percutaneous catheter management. AJR Am J Roentgenol 1997;169:381-3.
10. Sheik-Gafoor MH, Singh B, Moodley J. Traumatic thoracobiliary fistula: report of a case successfully managed conservatively, with an overview of current diagnostic and therapeutic options. J Trauma 1998;45:819-21.
11. Brunaud L, Sebbag H, Bresler L, Tortuyaux JM, Boissel P. Left hepatic duct injury and thoracobiliary fistula after abdominal blunt trauma. Hepatogastroenterology 2000;47:1227-9.
12. Rowe PH. Bilothorax--an unusual problem. J R Soc Med 1989;82:687-8.
13. Pisani RJ, Zeller FA. Bilious pleural effusion following liver biopsy. Chest 1990;98:1535-7.
14. Córdoba López A, Monterrubio Villar J, Bueno Alvarez-Arenas I. Biliothorax unrelated to fistula: a rare complication in gallbladder disease. Arch Bronconeumol 2008;44:396-7.
15. Sewell CM, Clarridge JE, Young EJ, Guthrie RK. Clinical significance of coagulase-negative staphylococci. J Clin Microbiol 1982;16:236-9.