

경피경간 담도내시경술 이후에 발병한 담즙흉 1예

울산대학교 의과대학 ¹울산대학교병원 내과학교실, ²서울아산병원 핵의학교실

박찬성¹, 이순정¹, 도기원¹, 오쌍용¹, 조 현¹, 김민수¹, 홍일기², 방성조¹, 제갈양진¹, 안종준¹, 서광원¹

A Case of Cholethorax following Percutaneous Transhepatic Cholangioscopy

Chan Sung Park, M.D.¹, Soon Jung Lee, M.D.¹, Gi Won Do, M.D.¹, Ssang Yong Oh, M.D.¹, Hyun Cho, M.D.¹, Min Su Kim, M.D.¹, Il Ki Hong, M.D.², Sung-Jo Bang, M.D.¹, Yang Jin Jegal, M.D.¹, Jong-Joon Ahn, M.D.¹, Kwang Won Seo, M.D.¹

¹Department of Internal Medicine, Ulsan University Hospital, Ulsan, ²Department of Nuclear Medicine, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

Cholethorax (bilious pleural effusion) is an extravasation of bile into the thoracic cavity via a pleurobiliary fistula (and also a bronchobiliary fistula). It is an extremely rare complication of thoraco-abdominal injuries. It can be caused by congenital anomaly and also by hepatobiliary trauma, severe infection or iatrogenic procedures. The definitive diagnosis is made with aspiration of bilious fluid from the pleural space during thoracentesis, by finding a fistulous tract during endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) or cholangioscopy, or with finding an abnormal pleural accumulation of radioisotope during hepatobiliary nuclear imaging. Its symptoms include coughing, fever, dyspnea and pleuritic chest pain. Herein we report on a case of cholethorax following performance of percutaneous transhepatic cholangioscopy (PTCS) to remove incidentally discovered common bile duct (CBD) stones. (*Tuberc Respir Dis* 2008;65:131-136)

Key Words: Biliary fistula, Pleural effusion, Bile, Cholangiography, Technetium Tc 99m Diethyl-iminodiacetic Acid

서 론

담즙흉은 담도 또는 담낭과 흉강 사이에 형성된 누공을 통해 담즙이 흉강으로 누출되어 흉수의 형태로 관찰되는 흉막염의 일종을 지칭하며 주로 흉강-복부 외상과 관련된 매우 드문 합병증이다¹. 간담도 부위의 외상, 감염, 의인성 손상 등이 주요 원인이며 천자된 흉수에서 담즙을 확인하거나 담즙객담(biliptysis)을 확인하여 진단한다. 내시경역행체담관조영술(endoscopic retrograde cholangiopancreatography, ERCP), 또는 경피경간 담도내시경술(percutaneous transhepatic cholangioscopy, PTCS)을 이용하거나 간담도스캔 등의 영상적 방법으로 흉강 내로의 담즙누출

이나 누공을 확인하여 확진할 수 있다. 주요 증상은 발열, 흉통, 호흡곤란 등이며 기관지담도누공(bronchobiliary fistula)이 동반된 경우는 담즙객담을 보일 수 있다. 그 동안 국내에는 담즙흉에 대한 문헌보고가 없었으며, 저자들은 최근 외상 후 흉막성 흉통과 호흡곤란을 호소하였고 충담관결석 제거를 위한 경피경간 담도내시경술 이후에 다량의 흉수가 발생한 환자에서 담즙흉으로 진단된 환자 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

증 례

환 자: 64세, 여자

주 소: 내원 당일 외상 후 발생한 우측흉통 및 호흡곤란
과거력 및 가족력: 35년 전 담낭절제술

흡연력 및 음주력: 흡연력과 음주력 없음.

현병력: 내원 3일 전 길을 걸어가던 중 후진하던 차와 무릎 뒷부분이 부딪히면서 넘어졌으며, 동시에 함께 넘어진 사람에 의해 오른쪽 가슴부위를 눌리게 된 뒤 우측 흉통 및 호흡곤란 발생되어 외부병원 입원 치료 받았으며

Address for correspondence: Kwang Won Seo, M.D.

Department of Internal Medicine, Ulsan University Hospital,
University of Ulsan College of Medicine, 290-3, Jeonhag-dong, Dong-gu, Ulsan 682-714, Korea

Phone: 82-52-250-7029, Fax: 82-52-251-8235

E-mail: kwseo@uuh.ulsan.kr

Received: Jun, 18, 2008

Accepted: Jul, 14, 2008

이후 상기 증상 지속되어 본원 응급실로 전원 되었다.

진찰소견: 본원 응급실 내원 당시 혈압은 109/66 mmHg, 맥박 66회/분, 호흡수 22회/분, 체온 36.6°C였다. 의식은 명료하였으나 급성병색을 보였고 결막관찰에서 빈혈의 증후는 보이지 않았다. 흡기 호흡 시에 우측 흉통을 호소하였으며 우측 흉부에 압통을 호소하였으나 뼈 마찰음(bony crepitus)은 없었으며, 피하출혈, 멍(bruise) 또는 부종의 증거는 관찰되지 않았다. 흉부 청진상 수포음, 천명 및 흉막 마찰음은 들리지 않았으며 심음은 정상이었다. 복부는 편평하였으며 압통이나 반발통은 없었다. 양측 하지에 경한 압통을 호소하였으나 멍 또는 부종의 증거는 관찰되지 않았으며 정강뼈 앞 함요부종(pretibial pitting edema)은 관찰되지 않았다.

초기 검사실 소견: 내원 당시 말초 혈액검사에서 백혈구 4,990/mm³ (호중구 58.6%), 혈색소 12.6 g/dl, 헤마토크리트 37.9%, 혈소판 209,000/mm³이었고 혈청 생화학검사에서 총단백질 6.6 g/dl, 알부민 4.1 g/dl, AST/ALT 57/29 IU/L, 총빌리루빈 0.9 mg/dl, 직접빌리루빈 0.3 mg/dl, BUN 13.8 mg/dl, Creatinine 0.9 mg/dl, LDH 422 IU/L (참고치: 218~472 IU/L), D-dimer 0.11 µg/ml (참고치: 0~1 µg/ml), Troponin T <0.010 ng/ml (참고치: 0~0.10 ng/ml)이었다. 혈청 전해질 검사에서 Na 144 mEq/L, K 4.0 mEq/L, Cl 108 mEq/L로 정상소견을 보였다. 혈액 응고 검사에서 프로트롬빈 시간은 12.9초(INR 1.01), 활성 부분 프로트롬빈 시간은 29.5초로 정상 범위 내였다. 실내공기에서 측정된 동맥혈가스분석에서 pH 7.409, PaCO₂ 39.9 mmHg, PaO₂ 56.6 mmHg, HCO₃⁻ 24.7 mM/L, O₂ saturation 90.8%로 저산소증을 보였다.

초기 방사선 검사 소견: 내원 당일 검사한 단순 X선 검사에서 늑골골절은 관찰되지 않았다. 흉부 및 복부 전산화 단층촬영상 폐영상 스캔에서 양측 하엽 구역 기관지(subsegmental bronchi)에 수동적 무기폐에 의한 경계가 불분명한 경결(consolidation)이 관찰되었으나 흉수는 보이지 않았다. 전조영제 영상에서 총담관에 고 감쇄 물질(high attenuation material)로 차있는 소견 보여 총담관 결석의 가능성이 높은 소견이었으며, 담도 확장 및 과거 담낭절제 소견이 관찰되었다.

임상 경과 및 추가 검사: 환자는 흉통의 조절 및 총담관 결석의 제거를 위해 입원하였으며, 환자가 구강의 이상감각 및 치통을 호소하여 내시경역행체담관조영술을 시행하지 못하였고, 입원 후 2병일에 경피경간 담도배액술(percutaneous transhepatic biliary drainage, PTBD)을

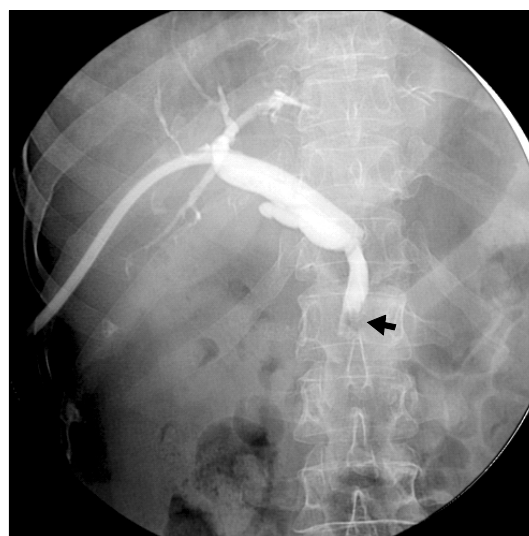


Figure 1. Follow-up tubography after tract dilatation shows total obstruction of the distal common bile duct (CBD) by a filling defect (arrow), which may be a CBD stone.

시행하였다. 5병일에 경피경간 담도내시경술을 통한 총담관결석 제거를 위해 담도확장술 및 18 프렌치의 PTCS 튜브를 삽입하였고 튜브 끝은 총담관 내에 위치시켰다.

이어서 담관조영술을 시행한 결과 하부 총담관내의 갑입된 총담관결석에 의해 조영제가 십이지장으로 내려가지 않는 소견이 관찰되었다(Figure 1). 환자는 8병일에 담관조영술을 시행 받았으며 5병일 때에 시행했던 담관조영술 때와는 달리 조영제가 십이지장으로 내려가는 소견 보였으나 총담관 내에 조영제의 결손 부위가 관찰되었다. 환자는 내원 14병일 때에 경피경간 담도내시경술을 시행 받았으며, 총수담관 내에 더 이상 남아있는 결석의 증거는 없는 것으로 확인되어 잔존결석이 빠져나간 것으로 판단하여 시술 후 PTCS 튜브를 제거하였다. 환자는 PTCS 튜브를 제거한 다음날부터 더욱 심해진 우측 흉통 및 호흡곤란을 호소하였으며 단순 흉부X선 검사에서 우측 흉수가 발생됨을 확인하였다. 이후 발열 및 흉수 증가 없이 흉통이 다소 감소되어 추적관찰 중 내원 18병일 때 추적 흉부 X선 검사에서 흉수의 양이 늘고 38.5°C의 발열이 있어 흉부 전산화단층촬영(Figure 2) 및 흉수천자를 시행하였다.

흉수검사 결과는 pH 7.593, 총단백질 2.4 g/dl (혈청 총단백질 5.5 g/dl), 알부민 1.4 g/dl (혈청 알부민 3.3g/dl), 포도당 139 mg/dl (혈청 포도당 130 mg/dl), LDH 2192 IU/L, 백혈구 8,000/mm³ (호중구 96%, 림프구 2%, 단핵구 2%), 적혈구 1,600/mm³로 삼출액(exudative effusion)

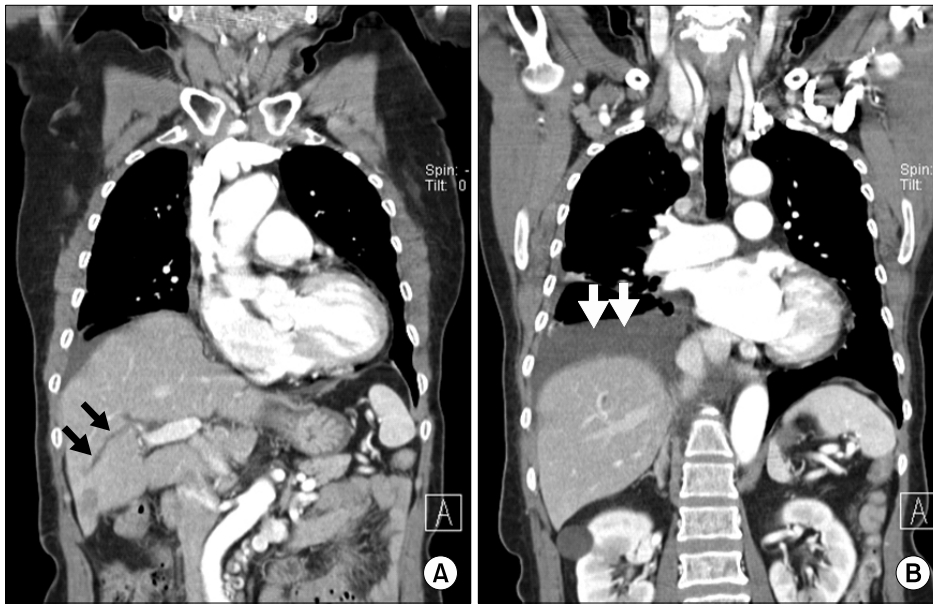


Figure 2. Chest CT scan shows remnant transhepatic biliary fistula (black arrows) after percutaneous transhepatic cholangioscopy (PTCS) tube removal (A) and right pleural effusion (white arrows) (B).



Figure 3. A bottle of fluid shows yellow-brownish bilious fluid from thoracic cavity via chest pigtail catheter.

에 합당한 소견으로, 부폐렴성 흉수 또는 횡경막하 농양과 같은 복부감염에 의한 이차적인 흉막삼출액을 의심하여 광범위 항생제를 투여하였으며, 내원 21병일 때에 pigtail 카테터 삽입을 시행하여 지속 배액을 유도하였고 그날 총 1400 ml의 흉수가 배액 되었다. 그러나 환자의 흉강 내에서 배액 되는 흉수의 색깔이 담즙과 비슷한 황갈색 소견을 보여(Figure 3), 담즙흉을 의심하였고 흉수 생화학검사를 시행하였다. 흉수 검사에서 총빌리루빈 21.4 mg/dl (혈청 총빌리루빈 1.2 mg/dl), 직접/간접 빌리루빈 11.7/9.7

mg/dl, 아밀라아제 70 mg/dl로 담즙흉에 합당한 소견임을 확인하였다. 내원 22병일 때에 ^{99m}Tc -mebrofenin 간담도 스캔을 시행하여 간에서 생성된 담즙이 우측 흉강 내로 누출되어 흉수를 형성하는 것을 확인하였다(Figure 4).

접촉사고 당시 흉부의 압박 외상으로 횡경막 손상의 가능성을 의심하여 흉강경검사를 고려하였으나 pigtail 카테터 삽입 후 환자의 발열은 감소하고 심한 통증이 점차 감소되는 등 증상이 호전되었으며, 또한 환자가 더 이상의 침습적 검사를 원치 않아 검사를 시행하지 않았다. 환자는 이후 점차 호소하던 흉통이 소실되었고 담즙 배액이 줄었으며 감염의 증거를 보이지 않아 내원 40병일에 pigtail 카테터를 제거한 후 퇴원하게 되었다.

고 찰

담즙흉은 1850년도 Peacock에 의해 간 포충증(hepatic echinococcosis)을 진단 받은 20세 여성에게서 병발한 기관지담도누공의 예로 처음 문헌보고 되었다(Dasmahapatra 등²에 의해 인용됨). 이후 여러 발생 원인이 보고 되었으며 담도흉강누공에는 기관지담도누공을 포함해서 보고되고 있는데, 선천적 기형³의 보고가 있으며 후천적 원인으로는 외상과 관련되어 간 외상¹, 복부 둔기외상⁴, 흉-복부의 총기손상(gunshot injury)^{5,6} 등의 예가 보고 되었으며, 감염과 관련되어 간의 기생충감염⁷, 간 아메바농양⁸, 담낭 질환과 관련된 담낭흉강누공(cholecystopleural fistula)⁹ 등이 있으며 의인성 원인으로는 담도 스텐트의 위치이동

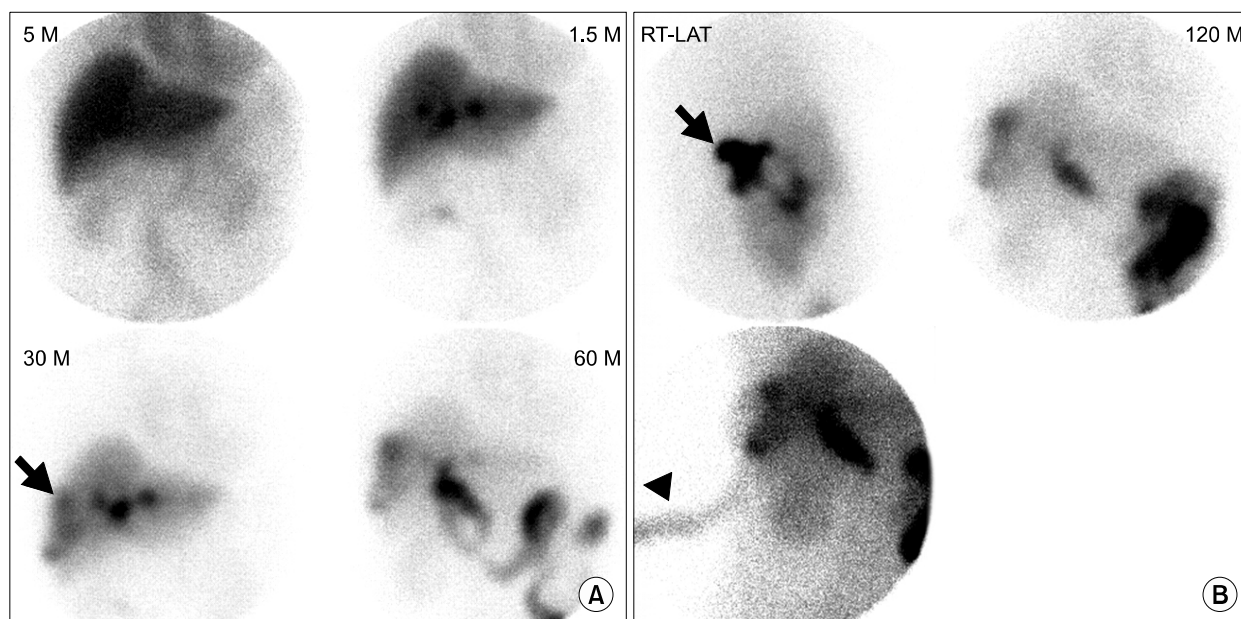


Figure 4. Hepatobiliary scan using 370 MBq of ^{99m}Tc -mebrofenin shows the radioactivity in the right pleural space after 30 minutes of injection in anterior view (A) and right lateral view (B) (arrows). After opening the clamp of pigtail catheter which was inserted into the right pleural space, drainage of the accumulated radioactivity is noted (arrowhead).

(biliary stent migration)², 고주파절제(radio-frequency ablation)¹⁰, 담낭절제술¹¹, 간조직검사¹², 경도관 동맥색전술(transcatheter arterial embolization)¹³, 경피경간 담도배액술¹⁴, 경피경간 담낭배액술(percutaneous transhepatic gallbladder drainage, PTGBD)¹⁵, 경피경간 담도내시경술¹⁶ 그리고 담도 수술 후 담도 협착과 동반¹⁷ 등과 같이 시술 또는 수술 이후에 합병증으로 병발한 예들이 보고되었다. 그 외 횡경막 손상 없이 직접적으로 횡경막을 통해 담즙이 통과되어 담즙흉이 발생된 예도 있었다¹⁸. 이는 복수가 흉강 내로 이동하여 발생하는 간성 물가슴증(hepatic hydrothorax)의 발생과 유사한 기전으로 설명되었다.

담즙흉의 증상은 기침¹⁰, 흉부 압박감¹⁹, 호흡곤란^{15,16,18,20}, 흉막성 흉통^{9,15,20}, 발열^{6,10,15,16}, 어깨나 견갑골 부위로의 방사통¹⁶ 등이 보고되었으며 염증성 흉수의 일반적인 증상인 호흡곤란과 발열 및 흉통이 흔하다. 그 외 누공이 기도나 기관지와 동반되거나 단독으로 연결되어 있는 기관지 담도누공의 경우에는 담즙객담이 관찰될 수 있으며 이 경우 진단에 특징적인 증거(pathognomonic hallmark)이다⁶.

담즙은 화학자극을 일으킬 수 있으며 흉막염증 및 흉막 유착을 일으킬 수 있어 가능한 빠른 시간에 흉강 배액 등을 통해 제거해 주는 것이 추천된다²⁰. 진단은 흉수천자에서 담즙의 존재를 통해 확진 되는데 생화학검사를 통해

흉수-혈청 총빌리루빈의 비(pleural- serum total bilirubin ratio)가 1을 초과할 때 진단할 수 있다⁵. 또한 담도흉강누공 또는 담도기관지누공을 확인하기 위해 내시경역행체담관조영술 또는 경피경간 담도내시경술을 이용하거나 간담도 스캔을 통한 담즙의 흉강내 누출을 확인하는 방법이 있다^{5,19}.

간담도스캔은 대개 ^{99m}Tc -iminodiacetic acid를 이용하여 시행하며 비교적 저렴한 비용과 쉬운 방법의 진단 방법으로 알려져 있다. 그러나 손상의 범위를 파악하거나 누공의 위치파악에는 한계가 있다⁵. 담즙흉의 치료로는 본 증례에서와 같이 흉관 또는 pigtail 카테터를 이용한 흉강배액을 하면서 담즙흉이 호전되는 경우로 이와 같은 보존적 치료로 완치가 되기도 하며¹⁵, 담도 폐쇄가 동반되었을 경우에는 치료적인 조임근절개술(sphincterotomy), 스텐트 삽입을 시도하거나⁶ 다른 경로를 통해¹⁶ 감압을 해주는 것이 추천된다. 그러나 담관 손상이 심하거나 보존적인 치료로 실패한 경우, 조절되지 않는 폐나 흉강내의 염증, 호흡부전의 진행 등이 동반된 경우에는 수술적 치료를 고려할 것을 추천하고 있다⁶.

본 증례와 유사하게 De Meester 등¹⁶은 경피경간 담도내시경술 이후에 발생한 담즙흉을 보고하였는데 담관염(cholangitis)이 합병된 담도결석(choledocholithiasis) 환

자에서 경피경간 담도내시경술을 시행하여 결석제거를 성공적으로 치료한 뒤 퇴원했던 환자가 3개월 뒤에 발생된 황달, 발열, 호흡곤란, 우측 견갑골 부위 통증 및 흉수로 내원하였고 재입원 후 시행한 내시경역행체담관조영술에서 담관결석 및 담도흉강누공을 확인하여 확진하였던 예였다. 그 환자는 비담도관(nasobiliary catheter)을 우측 간담도(hepatic duct)에 삽입한 뒤 반복 내시경역행체담관조영술에서 담관결석 및 누공의 소실을 확인하게 되었으며 천자된 흉수에서 담즙 확인 및 *E. coli* 균이 배양되어 항생제 및 흉강배액관으로 배액 치료 받았다. 저자는 다른 경로의 효과적인 담즙배액이 치료 성공에 중요하다고 제시하였다.

본 증례에서의 담즙흉의 발생에 대한 추론으로 일련의 교통사고와 연관된 외상에 의한 횡경막의 손상이 있었을 가능성과 횡경막 파열등의 손상은 없는 상태에서 경피경간 담도내시경술과 관련된 누공에서 누출된 담즙이 환자가 원래 가지고 있던 횡경막결손을 통하여 흉강으로 이동한 경우를 생각해 볼 수 있는데, 저자들은 전자의 가능성이 더 높을 것으로 추정하였다. 그 이유로는 후진하는 차에 접촉되어 환자가 넘어진 후 또 다른 사고 피해자에 의해 우측 가슴부위를 눌리면서 당시 심한 흉통을 호소하게 되었고 늑골골절이나 흉수의 발생은 없었지만 이후에도 증상호전이 적었던 점, 경피경간 담도배액술 및 담도내시경 시술 과정에 있어서 횡경막을 통과하여 담도로 누공을 형성하거나 하는 의인성의 횡경막 손상이 관찰되지 않았던 점(Figure 1, 2) 등을 들 수 있다. 즉, 외상에 의해 환자의 우측 횡경막이 전산화 단층촬영 영상에서 확인되지 않을 정도의 국소파열이 동반되어 있다가 PTCS 튜브를 제거했을 때 인공적 누공으로 흘러나온 담즙이 파열된 횡경막을 통해 누출되었을 가능성이 있다. 당시 저자들은 정확한 원인 규명을 위해 흉강경검사 시행을 고려하였으나 pigtail 카테터 유치 후 담즙흉의 호전과 환자의 원치 않음으로 인해 시행하지 않아 정확한 감별적 분석은 하지 못하였다. 또한 경피경간 담도내시경술을 위해서는 진행적인 담도확장(progressive duct dilatation)과 약 2주간 누공의 성숙(maturation)이 필요하다¹⁶. 따라서 장시간 튜브유치로 인해 누공의 자연적 막힘이 더디게 되면서 본 환자의 담즙흉의 발생과 유지에 영향을 미쳤을 것으로 사료된다. 담즙흉은 주로 흉강-복부 외상과 관련된 매우 드문 합병증이며 특히 의인성 원인인 간담도질환의 시술 및 수술과 관련되어 발생할 수 있어 간담도계의 시술 및 수술이 더욱 보편화 되어 시행되고 있는 최근에 그 발생이 늘어날 가능

성이 있을 것으로 사료된다. 그러나 그 동안 국내에는 담즙흉에 대한 문헌보고가 없었으며, 저자들은 최근 외상 후 흉막성 흉통과 호흡곤란을 호소하였고 담도결석 제거를 위한 경피경간 담도내시경술 이후에 흉수가 발생한 한 환자에서 담즙흉을 진단하고 성공적으로 치료한 경험이 있어 이를 보고하는 바이다.

요 약

담즙흉은 담도 또는 담낭과 흉강 사이에 형성된 누공을 통해 담즙이 흉강으로 누출되어 흉수의 형태로 관찰되는 흉막염의 일종으로, 주로 흉강-복부 외상과 관련된 매우 드문 합병증이며 그동안 국내에는 담즙흉에 대한 문헌보고가 없었다. 이에 저자들은 최근 외상 후 흉막성 흉통과 호흡곤란을 호소하였고 담도결석 제거를 위한 경피경간 담도내시경술 이후에 흉수가 발생한 환자에서 담즙흉으로 진단된 환자 1예를 경험하였기에 보고한다.

참 고 문 헌

1. Franklin DC, Mathai J. Biliary pleural fistula: a complication of hepatic trauma. *J Trauma* 1980;20:256-8.
2. Dasmahapatra HK, Pepper JR. Bronchopleurobiliary fistula. A complication of intrahepatic biliary stent migration. *Chest* 1988;94:874-5.
3. Weitzman JJ, Cohen SR, Woods LO Jr, Chadwick DL. Congenital bronchobiliary fistula. *J Pediatr* 1968;73:329-34.
4. 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.
5. Feld R, Wechsler RJ, Bonn J. Biliary-pleural fistulas without biliary obstruction: percutaneous catheter management. *AJR Am J Roentgenol* 1997;169:381-3.
6. Navsaria PH, Adams S, Nicol AJ. Traumatic thoracobiliary fistulae: a case report with a review of the current management options. *Injury* 2002;33:639-43.
7. Amir-Jahed AK, Sadrieh M, Farpour A, Azar H, Namdaran F. Thoracobililia: a surgical complication of hepatic echinococcosis and amebiasis. *Ann Thorac Surg* 1972;14:198-205.
8. Roy DC, Ravindran P, Padmanabhan R. Bronchobiliary fistula secondary to amebic liver abscess. *Chest* 1972;62:523-4.

9. Delco F, Domenighetti G, Kauzlaric D, Donati D, Mombelli G. Spontaneous biliothorax (thoracobilia) following cholecystopleural fistula presenting as an acute respiratory insufficiency. Successful removal of gallstones from the pleural space. *Chest* 1994;106:961-3.
10. Pende V, Marchese M, Mutignani M, Polinari U, Allegri C, Greco R, et al. Endoscopic management of biliopleural fistula and biloma after percutaneous radiofrequency ablation of liver metastasis. *Gastrointest Endosc* 2007;66:616-8.
11. Lehur PA, Guiberteau-Canfrère V, Bury A, Cloarec D, Le Borgne J. "Cholethorax" revealing injury to the common bile duct after celioscopic cholecystectomy. *Ann Chir* 1992;46:450-2.
12. Pisani RJ, Zeller FA. Bilious pleural effusion following liver biopsy. *Chest* 1990;98:1535-7.
13. 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.
14. Armstrong CP, Taylor TV. Intrapleural leakage of bile complicating percutaneous transhepatic drainage of the obstructed biliary tree. *J R Coll Surg Edinb* 1982;27:308-9.
15. Lee MT, Hsi SC, Hu P, Liu KY. Biliopleural fistula: a rare complication of percutaneous transhepatic gallbladder drainage. *World J Gastroenterol* 2007;13:3268-70.
16. De Meester X, Vanbeckevoort D, Aerts R, Van Steenberghe W. Biliopleural fistula as a late complication of percutaneous transhepatic cholangioscopy. *Endoscopy* 2005;37:183.
17. Boyd DP. Bronchobiliary and bronchopleural fistulas. *Ann Thorac Surg* 1977;24:481-7.
18. Rowe PH. Biliothorax: an unusual problem. *J R Soc Med* 1989;82:687-8.
19. Lee JK. Tc-99m DISIDA hepatobiliary scintigraphy showing bile leakage into the thoracic cavity. *Clin Nucl Med* 2001;26:861-2.
20. Turkington RC, Leggett JJ, Hurwitz J, Eatock MM. Cholethorax following percutaneous transhepatic biliary drainage. *Ulster Med J* 2007;76:112-3.