

폐 결핵으로 오인된 기관지식도루 1예

울산대학교 의과대학 서울아산병원 호흡기내과

오동욱*, 나승원*, 이광하, 박태선, 김선영, 나수영, 김원동

A Case of Bronchoesophageal Fistula Mimicking Pulmonary Tuberculosis

Dong Wook Oh, M.D.*, Seung Won Ra, M.D.*, Kwang Ha Lee, M.D., Tae Sun Park, M.D., Sun Young Kim, M.D., Soo Young Na, M.D., Won Dong Kim, M.D.

Division of Pulmonary and Critical Care Medicine, Department of Internal Medicine, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

Benign bronchoesophageal fistula is a rare disease and it may be characterized by nonspecific symptoms that can cause a delayed diagnosis. We misdiagnosed a patient with recurrent aspiration, which was due to bronchoesophageal fistula, as active pulmonary tuberculosis. The patient was 44 year old female who had suffered from chronic cough, especially during eating liquid meals, since 1982 when she had been treated for tuberculous lymphadenitis. Computed tomography showed an irregular mass with surrounding centrilobular nodules in the superior segment of the right lower lobe (RLL). She was diagnosed as having active pulmonary tuberculosis and treated with anti-tuberculosis medication, but she continued to complain of persistent cough even after anti-tuberculosis treatment. Thus, we reexamined the patient, and bronchoesophageal fistula between the esophagus and the superior segment of the RLL was finally confirmed by esophagography. After the fistula was surgically treated, the patient became asymptomatic and she then experienced good health. (*Tuberc Respir Dis* 2008;64:303-308)

Key Words: Chronic cough, Recurrent aspiration, Bronchoesophageal fistula, Tuberculosis, Tuberculous lymphadenitis, Fibrin Glue, Hemoclip

서 론

기관지식도루(bronchoesophageal fistula)는 선천적 기형 및 후천적 원인에 의해 발생할 수 있으며¹, 성인에서는 드문 질환이다. 후천적 원인 중 악성원인으로 식도암, 기관지암, 갑상선암, 종격동암 등이 있고^{1,2}, 양성원인으로는 감염 및 외상 등에 의해 발생할 수 있다³. 감염에 의한 경우는 결핵, 매독, *Histoplasmosis*, *Actinomyces*, 비특이성 감염 등이 원인이 될 수 있고, 외상에 의한 경우는 화학약품 음독, 협착부위 확장시술, 이물질 흡인, 기관내

관 및 기관절개술 후 삽입한 관에 의해 발생한다^{1,4}. 성인에서 발생하는 기관지식도루는 악성원인이 대부분이고 양성원인 중 감염에 의한 기관지식도루는 외상에 의한 기관지식도루보다 드물다^{1,2}. 최근 HIV 감염이 증가하면서 결핵 감염에 의한 기관지식도루의 증례보고가 증가 추세이지만⁵ 결핵의 후유증으로 발생한 기관지식도루에 의한 만성적인 흡인성 폐렴이 활동성 폐결핵으로 오인된 증례 보고는 없었다.

이에 저자들은 과거 결핵성 림프절염에 의해 기관지식도루가 발생한 후 수십 년간 만성 기침과 객혈 증상이 있고 방사선 소견상 활동성 폐결핵으로 오인된 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 한OO, 여자, 44세

주 소: 객혈을 동반한 기침

현병력: 내원 25년 전 폐결핵 및 결핵성 림프절염으로

*공동 1저자임.

Address for correspondence: Won Dong Kim, M.D.

Division of Pulmonary and Critical Care Medicine,
Department of Internal Medicine, Asan Medical Center,
University of Ulsan College of Medicine, 388-1, Pungnap
2-dong, Songpa-gu, Seoul 138-736, Korea
Phone: 82-2-3010-3131, Fax: 82-2-3010-6968
E-mail: wdkim@amc.seoul.kr

Received: Feb. 19, 2008

Accepted: Mar. 21, 2008

12개월간 항결핵제를 복용하였고, 이후 국물 등의 유동성 음식을 먹으면 기침하는 증상이 발생했다. 내원 2년 전 기침이 지속되어 시행한 흉부 전산화단층촬영에서 우하엽 위구역에 석회침착이 동반된 종괴 및 주위의 중심소엽성 결절 등 활동성 폐결핵이 의심되어(Figure 1) 항결핵제 치료를 6개월간 하였다. 당시 검사한 객담 도말 검사와 배양검사서 결핵균이 동정되지 않았고, 이후에도 식사시 발생하는 기침이 호전되지 않아 흡인을 의심하여 연하장애검사를 시행하였으나 이상은 없었다. 기침에 대한 원인을 찾지 못하고 지내던 중 내원 4일 전부터 손가락 하나 분량의 객혈과 기침이 발생하여 응급실을 통해 입원하였다.

과거력: 당뇨, 고혈압, 간염은 없었으며 입원력이나 수술력도 없었다.

가족력: 특이소견 없었다.

이학적 소견: 혈압 109/76 mmHg, 맥박 78회/분, 호흡수 22회/분, 체온 36.5°C이었고, 의식은 명료하였으며 만성 병색을 띠었다. 두경부 진찰소견에서 양측 경부에 과거 결핵성 림프절염의 후유증으로 발생한 반흔이 있었으나 만져지는 경부 림프절 종대는 없었고, 양측 쇄골상부 림프절 종대도 없었다. 청진소견에서 악설음, 천명음은 들리지 않았고, 심음은 규칙적이었으며, 심잡음은 들리지 않았다. 다른 장기에 이상소견은 없었다.

검사소견: 입원 당시 말초혈액검사는 백혈구 5,600/mm³(중성구 64.4%), 혈색소 13.1 g/dl, 혈소판 298,000/mm³이

었고, 혈액화학검사는 공복혈당 96 mg/dl, 뇨질소 9 mg/dl, 크레아티닌 0.5 mg/dl, Na 138 mmol/L, K 4.0 mmol/L, 총단백 7.7 g/dl, 알부민 3.8 g/dl, 총빌리루빈 0.4 mg/dl, AST 26 IU/L, ALT 18 IU/L, alkaline phosphatase 70 IU/L, 콜레스테롤 173 mg/dl로 정상범위였다. 일반 뇨검사항 특이 소견 없었고, HIV 항체검사도 음성이었다. 객담도말검사 및 객담 세균배양검사서 결핵균은 발견되



Figure 2. Chest X-ray showed multiple calcified nodules and a bulging mass with calcification at right paratracheal area.

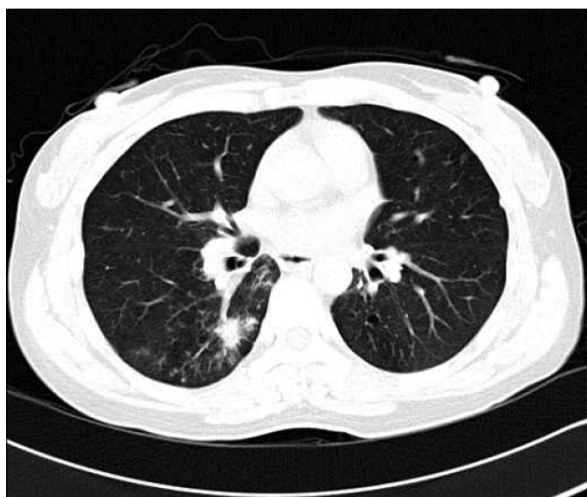


Figure 1. Chest CT showed irregular mass with central calcification and surrounding centrilobular nodules and branching lesions in superior segment of right lower lobe.



Figure 3. Chest CT showed cavitary lesion in superior segment of right lower lobe and fistulous tract (arrow) at right side of mid-esophagus.

지 않았으며 결핵피부반응검사는 0 mm로 음성이었다.

방사선 소견: 단순 흉부 방사선촬영은 2년 전과 크게 변화가 없었으나(Figure 2), 흉부 전산화 단층촬영에서 우하엽 위구역의 공동성 병변과 중부 식도의 우측부위에 기관지식도루가 관찰되었다(Figure 3). 식도조영술을 시행하여 확인한 결과 기관지분지부 아래의 식도와 우하엽 위구역 기관지 사이에 기관지식도루가 관찰되었다(Figure 4).

기관지내시경 검사: 우하엽 위구역에 협착소견이 있었고 화농성 분비물이 보여 제거 후 자세히 관찰하였으나 누공을 찾을 수 없었다(Figure 5). 기관지세척액의 결핵균 도말 검사와 배양검사는 음성이었고 세포진 검사도 음성이었다.

식도위내시경검사: 처음에 기관지식도루를 예상하지 못하고 시행한 식도위내시경검사에서는 정상소견이었다.

임상경과: 식도조영술로 기관지식도루를 확진한 후 시행한 식도위내시경검사서 상절치 30 cm 위치의 식도에서 2.4×3.0 mm 크기의 누공이 보여 섬유소아교로 누공을 막은 후 내시경하 클립 결찰술로 누공을 막았다(Figure 6). 내시경시술 후 다음날 흉통을 호소하여 식도조영술을 시행하였고 조영제가 기관지식도루를 통하여 여전히 누

출되는 것이 관찰되어 외과적 누공절제 및 구역절제술을 시행하였다. 수술 소견상 중부 식도부위에 기관지식도루가 관찰되었고, 주변에 염증이나 유착이 심하지 않았다. 병리소견에서는 만성염증에 의한 농양과 공동이 관찰되었고 섬유화와 석회화가 동반되어 있었으며, 세기관지가 확장되어 있는 소견을 보였다. 건락성 괴사나 육아종 등 결핵을 시사할만한 소견은 관찰되지 않았다(Figure 7).

수술 후 시행한 식도조영술(Figure 8)에서 조영제가 누출되는 것이 보이지 않았고 유동음식을 먹을 때 기침이 나는 증상도 없어져 특별한 증상이 없는 상태로 외래 경과 관찰 중이다.

고 찰

성인에서 후천적으로 발생하는 기관지식도루는 대부분 악성질환에 의해 발생하고 양성원인은 드물다². Massachusetts 병원에서 최근 40년간 기관지식도루로 진단된 228례를 분석한 결과 양성원인에 의한 기관지식도루는 6%에 불과하였다⁶. 양성원인에 의한 기관지식도루는 대부분 외상에 의해 발생하고 일부 감염이 원인이 될 수 있으나², 결핵으로 인한 기관지식도루는 결핵 유병률이 높은 국내에서도 드물게 보고되었었다^{4,7,8}. 최근 HIV 감염 환자의 증가로 인한 면역 결핍 환자의 증가로 인해 선진국에서도 결핵환자의 빈도가 증가하면서 결핵으로 인한 기관지

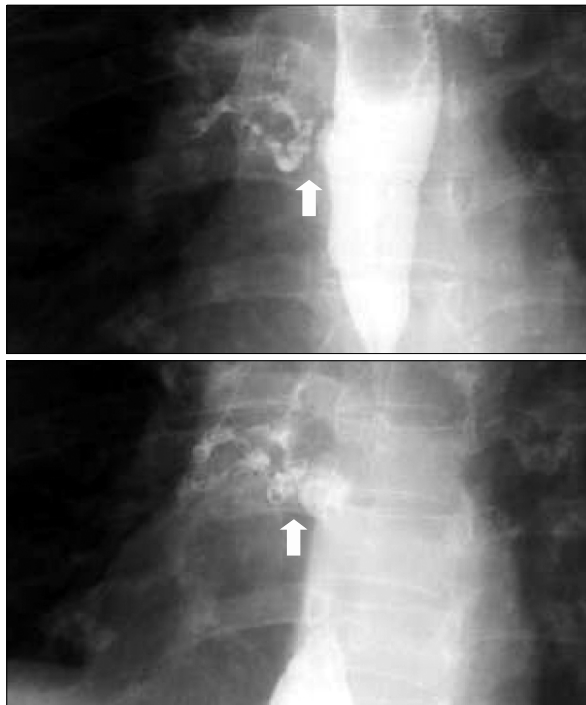


Figure 4. Esophagography showed fistulous tract (arrow) between the esophagus and the superior segment of right lower lobe.

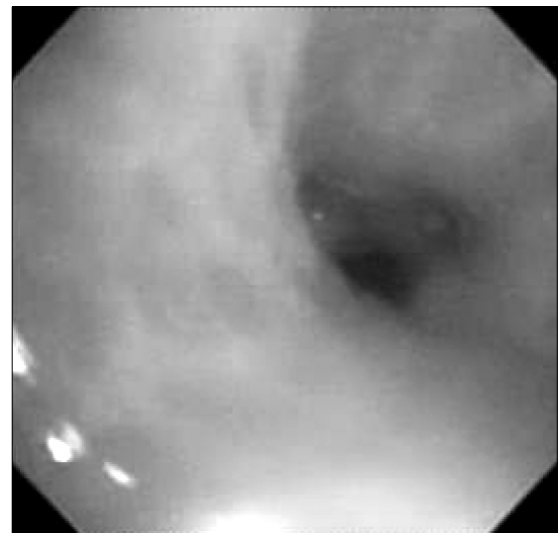


Figure 5. Bronchoscopy showed stenosis of the superior segmental bronchus of right lower lobe, but could not reveal the fistula orifice.

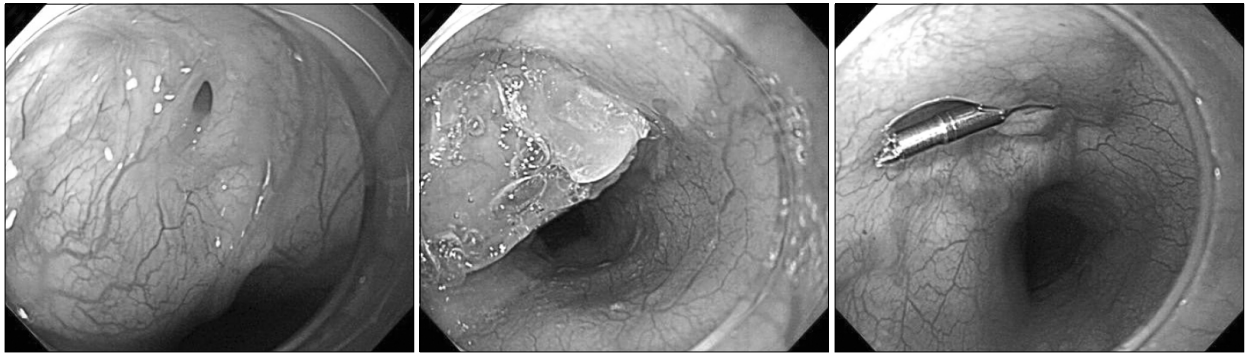


Figure 6. Esophagogastrobroscopy showed the fistula orifice and both fibrin glue and hemoclip were used for closing fistula orifice.

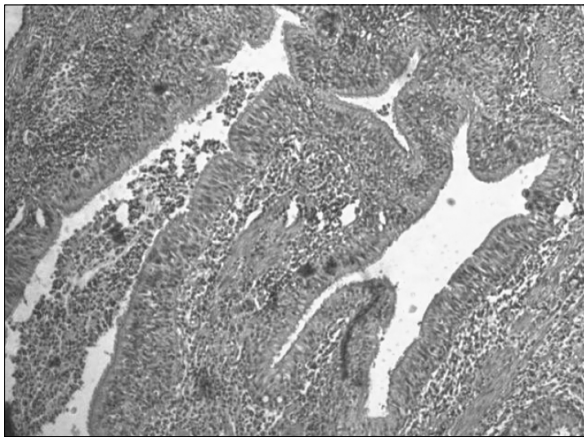


Figure 7. Pathologic findings showed chronic active inflammation with abscess, cavity and dilated bronchioles (H&E stain, ×400).

식도루의 발생 증례보고가 증가하였고, 이들 증례들은 모두 객담검사나 조직검사에 의해 결핵균이 증명되어 모두 활동성 결핵이 동반된 증례였다^{5,9-13}.

결핵성 기관지식도루의 발생기전은 첫째, 기관주위 및 종격동 림프절이 커지고 건락화된 후 괴사가 진행하여 농양이 형성되어 식도 및 기관지로 침범하여 파열되어 발생하고, 둘째, 기도의 결핵성 궤양이 진행하여 식도로 직접 교통하여 발생하며, 셋째, 결핵으로 인한 만성 염증으로 기관과 기관지 림프절들이 식도와 유착되어 식도의 견인성 계실을 형성한 후 계실이 천공되어 발생하는 것으로 보고되고 있다^{1,2,8,14}.

기관지식도루의 증상으로는 만성 기침, 객혈, 흉통, 연하곤란 및 재발성 호흡기 감염 등이 있다^{1,2,8,15}. 유동성 음식을 먹은 후 발작적으로 기침하는 증상(Ono's sign)은 전



Figure 8. Esophagography after fistulectomy operation showed no fistulous tract.

형적인 증상으로 다른 원인 없이 발생한 경우 기관지식도루를 의심해야한다^{3,4,15}. 기관지식도루가 존재하더라도 악성 종양에 의한 것이 아닌 경우, 기침 등의 증상이 심하지 않아 별다른 치료 없이 지내는 경우가 많으나 흡인성 폐렴과 같은 심각한 합병증을 초래할 수 있다^{3,4,7,15}.

기관지식도루의 진단은 식도조영술, 식도내시경검사, 기관지내시경 및 흉부 전산화단층 촬영을 하여 진단을 할 수가 있다^{3,8,15,16}. 발생 초기의 기관지 식도루는 식도내시경검사나 기관지내시경 및 흉부 전산화단층촬영으로 발견하지 못하는 경우가 많은데, 이런 경우 식도조영술에서 누공을 통하여 식도에서 기관지로 조영제가 누출되는 것이 보이면 확진할 수 있다^{2,3,15,16}.

기관지식도루의 치료는 수술이 원칙이고^{2,4,8,15}, 기관지식도루와 함께 기관지식도루로 인해 손상된 폐조직을 같이 제거하는 것이 일반적인 방법이다^{2,4,15}. 그러나 최근에 는 금식 및 경정맥 영양공급, 항생제 혹은 항결핵제 투여 등의 내과적 치료와 내시경을 사용한 중재적 시술로 성공적으로 치료한 증례가 보고되고 있다^{1,4,7}. Lado 등¹은 결핵성 기관지식도루 환자에서 항결핵제 및 내시경을 사용하여 치료하였고, 국내에서는 Park 등⁴이 결핵성 기관지식도루를 항결핵제만으로 치료할 수 있었고, Cho 등⁷이 보고한 예에서는 Histoacryl 같은 조직 유착 물질을 주입하여 치료하였다. 하지만 본 증례와 같이 활동성 결핵이 아니고 장기간 지속된 기관지식도루는 내과적 치료나 내시경적 치료보다 처음부터 수술적 치료를 해야 할 것으로 사료된다.

본 증례의 병리소견에서는 항산균염색 음성이었으며 건락성괴사 같은 결핵을 시사할 만한 소견은 없었고 농양 및 세기관지의 낭성 확장이 관찰되었다. 환자의 흡인 증상이 20년 이상 지속되고 있었으므로 기관지식도루를 통해 흡인성 폐렴이 만성적으로 반복되었을 가능성을 시사하는 병리소견이었다.

성인에서 양성원인에 의한 기관지식도루는 서서히 진행되는 임상양상을 가지며 비특이적인 증상과 질환의 회소성으로 인해 진단이 늦어지고 적절한 치료를 받지 못하는 경우가 흔하다. 본 증례는 결핵성 림프절염의 후유증으로 기관지식도루가 발생한 후 서서히 진행하면서 만성 흡인이 되어 기침과 객혈이 생기고 방사선 소견상 활동성 결핵으로 오인되어 진단이 늦어지고 조기에 적절한 치료를 받지 못하였다. 결핵 유병률이 높은 국내에서도 본 예와 같이 방사선 소견상 활동성 폐결핵이 의심되는 환자가 반복적인 객담검사서 결핵균이 증명되지 않고, 다른 원인이 없이 Ono's sign을 보이면 식도조영술 등의 적극적인 검사를 하여 기관지식도루를 조기에 발견해서 심각한 폐 합병증이 발생하기 전에 적절한 치료를 해야 한다는 교훈을 주는 증례로 문헌고찰과 함께 보고하였다.

요 약

성인에서 양성 원인에 의한 기관지식도루는 드물며 활동성 결핵이 원인 중 하나로 보고 되었지만 본 증례와 같이 결핵 후유증으로 장기간에 걸쳐서 발생할 수도 있고 만성 흡인과 기침 및 객혈의 원인이 될 수 있으며 활동성 폐결핵으로 오인될 수 있으므로 임상 의사들의 주의가 필

요하다.

참 고 문 헌

1. Lado Lado FL, Golpe Gomez A, Cabarcos Ortiz de Barron A, Antunez Lopez JR. Bronchoesophageal fistulae secondary to tuberculosis. *Respiration* 2002;69:362-5.
2. Spalding AR, Burney DP, Richie RE. Acquired benign bronchoesophageal fistulas in the adult. *Ann Thorac Surg* 1979;28:378-83.
3. Murdock A, Moorehead RJ, Tham TC. Closure of a benign bronchoesophageal fistula with endoscopic clips. *Gastrointest Endosc* 2005;62:635-8.
4. Park JH, Moon JH, Kim JH, Choi HJ, Lee JS, Hwang SC, et al. A case of tuberculous tracheoesophageal fistula. *Korean J Med* 1987;32:690-5.
5. Allen CM, Craze J, Grundy A. Tuberculous broncho-esophageal fistula in the acquired immunodeficiency syndrome. *Clin Radiol* 1991;43:60-2.
6. Mangi AA, Gaissert HA, Wright CD, Allan JS, Wain JC, Grillo HC, et al. Benign broncho-esophageal fistula in the adult. *Ann Thorac Surg* 2002;73:911-5.
7. Cho KH, Park JH, Jeong ID, Lee BM, Kim DI, Lee JW, et al. A case of broncho-esophageal fistula treated by histoacryl (R) injection therapy. *Korean J Gastrointest Endosc* 2005;31:161-5.
8. Oh SH, Kim JK, Wie SH, Kim PS, Kang SH, Kim JI, et al. A case of tuberculous bronchoesophageal fistula. *Korean J Gastrointest Endosc* 1995;15:235-9.
9. Asnis DS, Saltzman HP, Giron JA. Bronchoesophageal fistula due to multidrug-resistant tuberculosis in a patient infected with human immunodeficiency virus. *Clin Infect Dis* 1995;21:1061-2.
10. Dronda F, Fernandez-Martin I, Gonzalez-Lopez A, Puente L. Delayed development of tuberculous bronchoesophageal fistulas in a patient with AIDS necessitates endoscopic surgery. *Clin Infect Dis* 1995;21:1062-3.
11. Porter JC, Friedland JS, Freedman AR. Tuberculous bronchoesophageal fistulae in patients infected with the human immunodeficiency virus: three case reports and review. *Clin Infect Dis* 1994;19:954-7.
12. Vartian CV, Septimus EJ. Bronchoesophageal fistula due to Mycobacterium tuberculosis and cytomegalovirus in a patient with AIDS. *Clin Infect Dis* 1996;22:581.
13. Alkhuja S, Miller A. Tuberculous bronchoesophageal fistulae in patients infected with the human immunodeficiency virus: a case report and review. *Heart Lung*

- 1998;27:143-5.
14. Chiu HH, Chen CM, Mo LR, Chao TJ. Gastrointestinal: tuberculous bronchoesophageal fistula. *J Gastroenterol Hepatol* 2006;21:1074.
 15. Griffo S, Stassano P, Iannelli G, Di Tommaso L, Cicalese M, Monaco M, et al. Benign bronchoesophageal fistula: report of four cases. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2007;133:1378-9.
 16. Gerzic Z, Rakic S, Randjelovic T. Acquired benign esophagorespiratory fistula: report of 16 consecutive cases. *Ann Thorac Surg* 1990;50:724-7.
-