

식도종격동누공을 형성한 결핵 종격동 림프절염 1예

울산대학교 의과대학 서울아산병원 ¹내과, ²소화기내과

김진영¹ · 김호연¹ · 이형경¹ · 정민선¹ · 형례창¹ · 김도훈² · 정훈용²

Esophago-Mediastinal Fistula Due to Tuberculous Mediastinal Lymphadenitis

Jinyoung Kim¹, Hoyun Kim¹, Hyeungkyeung Lee¹, Minseon Cheong¹, Li Chang Hsing¹, Do Hoon Kim², and Hwoon-Yong Jung²

Departments of ¹Internal Medicine, ²Gastroenterology, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

Tuberculosis rarely involves the esophagus, and most esophageal tuberculosis occurs secondary to adjacent tuberculous lymphadenitis. An esophago-mediastinal fistula is a very unusual complication of tuberculous lymphadenitis. Herein, we report a case of an esophago-mediastinal fistula due to tuberculous lymphadenitis. A 28-year-old woman who had dysphagia was assessed by chest computed tomography, endoscopy, esophagogram, and a lymph node biopsy. An esophago-mediastinal fistula was found and an antituberculous agent was considered initially. However, because of her severe dysphagia, she managed with endoscopic clipping as an alternative. However, the fistula remained on follow-up esophagography. A gastrostomy was eventually performed, and she was treated with an antituberculous agent. The fistula had closed after 4 weeks of medication. Antituberculous agents are the mainstay treatment for esophago-mediastinal fistula due to tuberculous lymphadenitis; endoscopic clipping may be a complementary treatment. (Korean J Med 2018;93:477-481)

Keywords: Esophageal fistula; Tuberculosis; Lymph node

서 론

결핵의 식도 침범은 매우 드물다. 결핵 식도염의 가장 흔한 원인으로 인접한 결핵성 종격동 림프절염이 가장 흔하다고 알려져 있으나 폐와 척추 등의 인근 구조물의 감염 및 원발성 혈행성 전파로도 발생할 수 있다[1-3]. 결핵 식도염으로 인한 합병증으로는 식도종격동누공 형성, 식도기관지누공

형성, 식도대동맥누공 형성 등이 있으며 그중 식도종격동누공이 형성되면 흉부 전산화단층촬영에서 종격동내 공기 음영 소견이 보이고 식도 조영술에서 조영제 누출 및 누공의 개구를 관찰할 수 있다[4,5].

국내에서는 1990년 결핵성 종격동 림프절염과 이의 합병증인 식도종격동누공이 형성된 증례를 처음 보고하였으며[6] 최근 결핵 유행률 감소에 따라 추가적인 보고들이

Received: 2017. 4. 12

Revised: 2017. 9. 2

Accepted: 2017. 9. 4

Correspondence to Do Hoon Kim, M.D., Ph.D.

Department of Gastroenterology, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, 88 Olympic-ro 43-gil, Songpa-gu, Seoul 05505, Korea

Tel: +82-2-3010-3193, Fax: +82-2-476-0824, E-mail: dohoon.md@gmail.com

Copyright © 2018 The Korean Association of Internal Medicine

This is an Open Access Article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

아주 드물게 이뤄지고 있다. 저자들은 결핵 종격동 림프절염과 동반된 식도종격동누공에 대하여 내시경적 클립 결찰술 시행하였으나 누공 폐쇄에 실패하였고 항결핵제만으로 성공적 치료를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

28세 여자가 1개월 전부터 시작된 연하 통증으로 타병원에 내원하였다. 연하 통증과 함께 구역, 구토, 식욕 감소를 동반하고 있었고 밤마다 속옷을 적실 정도로 땀을 흘리는 증상이 있었다. 과거력에서 건강하였던 환자이며 복용 중인 약물은 없었다. 내원 당시 활력 징후는 혈압 100/62 mmHg, 맥박 82회/분, 호흡 20회/분, 체온 37.4℃였고 전신 상태는 만성으로 아파 보이고 의식은 명료하였다. 두경부, 흉부 진찰에서 특이 소견은 없었고 복부 진찰에서 명치 부위 압통을 호소하였다.

타병원 말초혈액 검사에서 백혈구 5,200/mm³, 혈색소 11.8 g/dL, 혈소판 313,000/mm³였고, 혈청 생화학 검사에서 총 단백 8.7 g/dL, 알부민 3.8 g/dL, 총 빌리루빈 0.5 mg/dL, aspartate aminotransferase 56 IU/L, alanine aminotransferase 32 IU/L, alkaline phosphatase 180 IU/L였다. 면역 혈청 검사에서 hepatitis B virus surface antigen (HBsAg), hepatitis B virus surface anti-body (HBsAb), hepatitis C virus antibody (anti-HCV) 및 HIV antibody는 모두 음성이었다.

타병원 흉부 전산화단층촬영에서 폐실질내 활동성 결핵 및 결핵 반흔은 없었고 오른쪽 빗장 위 림프절, 종격동 림프절, 오른쪽 폐문 림프절이 커져 있으며 림프절내 중심부는 저음영, 가장자리는 윤상의 조영 증강 소견을 보여 종격동 림프절염이 의심되었다. 또한 종격동에 공기 음영이 관찰되어 합병증인 식도종격동누공 형성이 의심되었다(Fig. 1). 타병원 위내시경에서 상절치료로부터 20-22 cm 되는 곳에 깊은 궤양과 누공의 개구부가 관찰되었고(Fig. 2) 식도 조영술에서 같은 부위에 깊은 궤양과 함께 오른쪽 측면으로 조영제 누출이 관찰되었다(Fig. 3). 타병원 객담 검사에서 항산균 도말 음성이었지만 결핵 중합효소연쇄반응에서 양성 소견을 보였기에 결핵 종격동 림프절염 및 이의 합병증인 식도종격동누공으로 진단하였다. 항결핵제 치료를 계획하였으나 환자는 심한 구역감과 연하 통증으로 경구 투약이 어려웠다. 내시경적 클립 결찰술을 먼저 시행하여 누공 폐쇄가 이루어지면 경구 항결핵제를 투약하기로 하였으나 시술 20일 후 추적 식도 조영술에서 누공 폐쇄가 이루어지지 않아 본원으로 전원되었다.

본원에서 결핵 림프절염을 진단하기 위하여 오른쪽 빗장 위 림프절에 대하여 조직학적 검사를 시행하였다. 조직학적 소견에서 괴사를 동반한 육아종 염증 소견을 보이고 항산균 도말 검사 및 결핵 중합효소연쇄반응에서 양성 소견을 보여 결핵 종격동 림프절염 및 이의 합병증인 식도종격동누공을 진단하였다. 위내시경에서 상절치료로부터 20-22 cm 되는 곳에



Figure 1. An esophago-mediastinal fistula (arrow) and enlarged lymph nodes considered to be tuberculous lymphadenopathy (arrowhead) were revealed on a chest computed tomography scan.

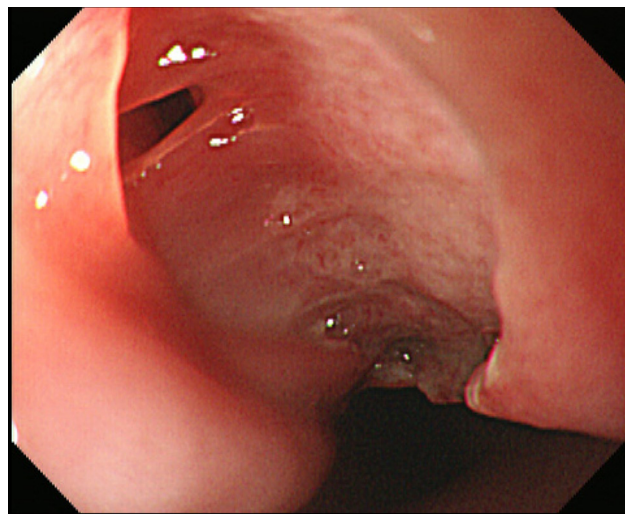


Figure 2. A deep esophageal ulcer was noted at the upper incisor with a 24-cm fistula tract on the initial upper gastrointestinal endoscopy.

궤양 및 누공 개구부를 관찰하였고 이전에 유치한 클립이 관찰되어 제거하였다. 환자는 지속적인 구역감을 호소하였고, 항결핵제 투약이 중요할 것으로 판단하여 경피적 내시경 위루술 시행 후 항결핵제(isoniazid, rifampicin, ethambutol, pyrazinamide) 투여 및 경장영양을 시작하였다. 항결핵제 투약 10일째 시행한 흉부 전산화단층촬영에서 식도종격동누공이 남아있는 소견이 보였으나 항결핵제 투약 28일째 시행한 식도 조영술에서 누공이 폐쇄되었음을 관찰할 수 있었다(Fig. 4). 항결핵제

투약 32일째 경구 식이를 시작하였으며 35일째 시행한 위내시경 검사에서 누공 폐쇄가 확인되어(Fig. 5), 위루관을 제거하고 이후 3일간 경과 관찰 후 특이 소견이 없어 퇴원하였다.

본 환자는 식도종격동누공 첫 진단 후 누공 폐쇄를 위한 내시경적 클립 기술을 시행하였고 14일 동안 금식하였으나 막히지 않아, 본원 내원 후 경피적 내시경 위루술 후 항결핵제 치료를 시작하면서 30일간 추가적으로 금식 시행 이후 누공 폐쇄가 확인된 환자로 이후 항결핵제를 복용하면서 외래에서 추적 경과 관찰하였으며 연고지 병원 전원 후 약 1년간 약제 유지 후 치료를 종료하였다.

고 찰

식도의 점막은 타액과 점액으로 덮여있는 중층 편평상피세포로 구성되어 있고, 빠른 연동운동으로 인하여 결핵균이 점막을 침범할 기회가 줄어들어 결핵에 의하여 식도가 침범되는 경우는 매우 드물며 이의 합병증인 식도종격동누공 형성은 더욱 드문 것으로 알려져 있다. 식도 침범은 대부분 인접한 구조물인 종격동 림프절에서 전파하고 특히 종격동의 다른 림프절 침범보다 식도와 가장 인접해 있는 기관분기하림프절 침범된 경우에 식도종격동누공이 잘 생긴다[3]. 1913년 Lockard [1]는 결핵으로 사망한 16,489명을 대상으로 사체 부검을 시행하였을 때 25명인 0.15%에서만 식도 침범이 있음을 확인하였다. 1987년 Dantew 등[7]은 20명의 식도 결핵 환



Figure 3. Extra-luminal contrast leakage was detected on the initial esophagogram (arrow).



Figure 4. Follow-up esophagogram demonstrates no extra-luminal contrast leakage.

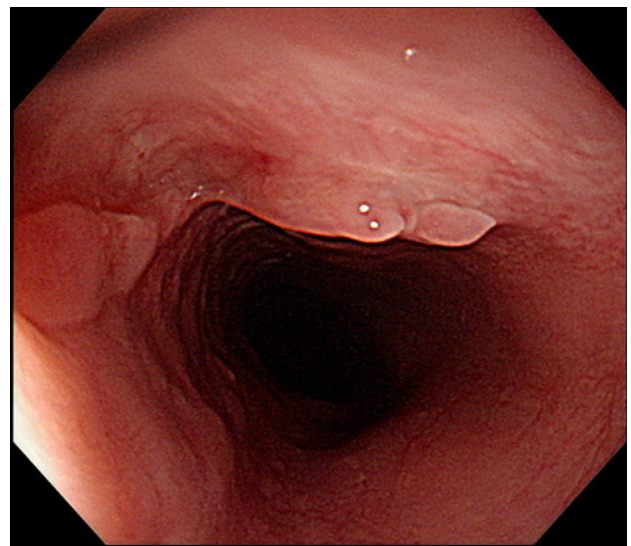


Figure 5. Follow-up upper gastrointestinal endoscopy demonstrates closure of the esophageal fistula.

자들을 검토하였고 1992년 Mokoena 등[2]은 11명의 식도 결핵 환자들을 검토하였는데, 총 31명 환자들 중 2명에서만 식도종격동누공 합병증이 확인되어 이의 발생 빈도가 낮음을 알 수 있었다.

결핵의 식도 침범으로 나타날 수 있는 임상 증상은 다양하나 연하 통증이 가장 흔하다. 이외에도 발작성 기침, 흡인성 폐렴, 발열, 기침, 체중 감소 등이 보고되었다. 연하 통증은 주로 식도 궤양과 연관되며 발작성 기침, 흡인성 폐렴이 발생하면 합병증으로 식도기관지누공 발생을 의심해 볼 수 있다[3]. 본 증례의 경우 주로 연하 통증, 구역, 구토가 있었지만 발작성 기침, 흡인성 폐렴 등의 증상은 나타나지 않았다.

결핵의 식도 침범은 보통 내시경에서 궤양성 병변으로 나타나며 이후 식도 내강을 침범하는 비후성 병변을 보이거나 협착을 동반할 수도 있으며 때로는 외인성 압박 형태로도 보일 수 있다. 비후성 병변은 식도의 중간 부위를 주로 침범하고 식도내강의 협착과 폐쇄를 유발할 수 있다. 과립성 병변은 가장 드물고, 속립성 결핵에서 식도의 점막 표면을 회색의 과립으로 덮고 있는 소견을 나타낸다[8]. 결핵 종격동 림프절염은 흉부 전산화단층촬영에서 림프절내 중심부 저음영 및 주변부 조영증강 소견을 보이고 식도종격동누공은 종격동내 국소성 공기 음영 소견을 보인다[5]. 식도종격동누공은 식도 조영술에서 누공을 통한 조영제 누출로 누공의 개구를 관찰할 수 있다[4].

식도 병변 및 림프절에 대한 조직학적 소견은 건락성 괴사, 육아종 형태로 조직 검체에 대한 항산균 도말 검사, 결핵 중합효소연쇄반응 검사가 진단에 도움이 된다. 내시경적 조직 검사를 시행한 식도 결핵 환자의 50% 이상에서 전형적인 육아종이 나온 반면 25% 미만에서 항산균 도말 검사 양성으로 보고되었다[3]. 본 증례의 경우 림프절 조직학적 소견이 건락 괴사를 동반한 육아종 형태였고 항산균 도말 검사, 결핵 중합효소연쇄반응이 양성으로 확인되어 결핵 림프절염을 진단할 수 있었다. 또한 흉부 전산화단층촬영에서 종격동내 공기 음영이 보여 식도종격동누공을 확인할 수 있었고 식도 조영술을 통하여 누공 개구를 확인하였다.

식도종격동누공은 대부분 항결핵제 치료만으로 누공이 폐쇄되었으나, 한 예에서 항결핵제 사용 이후에도 누공 폐쇄가 이루어지지 않아 내시경적 클립 결찰술을 시행한 후 누공 폐쇄가 된 예가 있다[9]. 본 증례의 경우는 연하 통증, 구역, 구토가 심하여 경구 항결핵제 투약이 어려워 내시경적 클립

결찰술을 먼저 시행하는 것으로 계획하였으나 항결핵제 치료 없이 내시경적 클립 결찰술만으로는 누공 폐쇄가 어려웠다. 경피적 내시경 위루술을 통하여 항결핵제 투약이 가능하면서 증상이 호전되었고 28일 후 시행한 식도 조영술에서 누공이 폐쇄되었음을 확인하였다.

본 증례에서 우리는 결핵 감염에 의한 식도종격동누공 치료는 무엇보다 항결핵제 치료가 중요함을 경험하였다. 만약 환자의 연하 통증, 구역, 구토의 증상으로 인하여 항결핵제 투여가 어려울 경우 일시적으로 경피적 내시경 위루술을 시행하여 약물 치료를 시작하는 것이 도움이 될 수 있겠으며 내시경적 시술은 약물 치료에도 호전이 없을 경우에 보완적으로 도움을 얻는 치료로 생각되어 보고한다.

요 약

결핵의 식도 침범 및 이의 합병증인 식도종격동누공 형성은 매우 드물고 국내 보고가 거의 없다. 대부분 종격동 림프절염에서 식도 침범이 이루어지고 이러한 경우 식도종격동누공을 형성할 수 있다. 저자들은 식도종격동누공 치료에 내시경적 클립 결찰술을 먼저 시도하였으나 누공 폐쇄에 실패하였고, 경피적 내시경 위루술을 통한 항결핵제 치료만으로 누공 폐쇄를 경험하였기에 보고한다.

중심 단어: 식도 누공; 결핵; 림프절

REFERENCES

1. Lockard LB. Esophageal tuberculosis; a critical review. *Laryngoscope* 1913;23:561-584.
2. Mokoena T, Shama DM, Ngakane H, Bryer JV. Oesophageal tuberculosis: a review of eleven cases. *Postgrad Med J* 1992;68:110-115.
3. Devarbhavi HC, Alvares JF, Radhikadevi M. Esophageal tuberculosis associated with esophagotracheal or esophagomediastinal fistula: report of 10 cases. *Gastrointest Endosc* 2003;57:588-592.
4. Williford ME, Thompson WM, Hamilton JD, Postlethwait RW. Esophageal tuberculosis: findings on barium swallow and computed tomography. *Gastrointest Radiol* 1983;8:119-122.
5. Moon WK, Im JG, Yeon KM, Han MC. Mediastinal tuberculous lymphadenitis: CT findings of active and inactive disease. *AJR Am J Roentgenol* 1998;170:715-718.
6. Im JG, Kim JH, Han MC, Kim CW. Computed tomography

- of esophagomediastinal fistula in tuberculous mediastinal lymphadenitis. *J Comput Assist Tomogr* 1990;14:89-92.
7. Dantew B, Frengley D, Wolinsky E, Spagnuolo PJ. Esophageal tuberculosis: mimicry of gastrointestinal malignancy. *Rev Infect Dis* 1987;9:140-146.
 8. Jain S, Jain S, Jain M, Yaduvanshi A. Esophageal tuberculosis: is it so rare? Report of 12 cases and review of the literature. *Am J Gastroenterol* 2002;97:287-291.
 9. Albuquerque A, Nunes ACR, Azevedo F, Macedo G. Successful closure of unusual tuberculous esophagomediastinal fistula with endoscopic clips. *GE Port J Gastroenterol* 2013;20:219-221.