

악성 림프종 환자의 비협착성 식도-기관지 누공에 대한 Cuffed 인공식도관 삽입술

아주대학교 의과대학 소화기내과학교실

이광재 · 김진홍 · 박영숙 · 홍사준
김영수 · 함기백 · 조성원 · 이상인

= Abstract =

Endoscopic Treatment with a Cuffed Prosthesis for Esophago-tracheal Fistula without Esophageal Stricture in a Patient with Malignant Lymphoma

Kwang Jae Lee, M.D., Jin Hong Kim, M.D., Young Sook Park, M.D.
Sa Joon Hong, M.D., Young Soo Kim, M.D., Ki Baik Hahm, M.D.
Sung Won Cho, M.D. and Sang In Lee, M.D.

*Department of gastroenterology, School of medicine,
Ajou University, Suwon, Korea*

An esophago-tracheal fistula is a distressing and rapidly fatal complication of cancer infiltrating the mediastinum. The passage of swallowed saliva and solid or liquid food into the bronchial tree causes coughing and frequent episodes of pulmonary infection and collapse. Curative resection is generally impossible due to the extent of the malignant lesion and respiratory disability. In principle, peroral endoscopic intubation provides the best available palliative therapy. Peroral intubation with a standard prosthesis fails to occlude inoperable malignant esophago-tracheal fistulas located above the narrowed segment or when there is little or no stricture at all. To overcome these problems, the fistula is intubated perorally with a prosthesis surrounded by a foam rubber cuff contained in silicone sheath, in which a vacuum can be created. The cuffed esophageal prosthesis can improve the quality of life in patients with malignant esophago-tracheal fistulas that do not respond to conventional intubation.

We experienced a case of the endoscopic treatment with a cuffed prosthesis for esophago-tracheal fistula without esophageal stricture in a patient with malignant lymphoma. After treatment, there were no symptoms related to the fistula and good transit of food was achieved. So we report this case with a brief review of the previous literatures. (*Korean J Gastrointest Endosc* 16: 414~420, 1996)

Key Words: Esophago-tracheal fistula, Cuffed prosthesis, Malignant lymphoma

서 론

식도와 기도는 해부학적으로 근접해 있어 식도암과 폐암등이 주위조직을 침습하여 괴사를 일으키는 과정에서 식도-기관지 누공이 드물지 않게 발생할 수 있다. 식도-기관지 누공은 식도암의 4.9%, 폐암의 0.16%, 기관암(tracheal cancer)의 14.7%에서 관찰할 수 있으며¹⁾, 드물게 식도의 평활근육종²⁾, 종격동 림프절을 침범한 악성 림프종 환자에서도 볼 수 있다^{1,3)}. 이들 환자에서 식도-기관지 누공은 대부분 1개월내에 급격히 사망에 이르게 되는 중독한 합병증의 하나로, 비록 종양이 전신에 퍼진 것을 의미하지는 않으나 반복되는 흡인에 의해 질식과 폐렴, 폐허탈, 폐농양등이 빈번히 발생되어 예후를 급격히 악화시킬 수 있으므로 빠른 진단과 적절한 치료가 필요하다.

이러한 식도-기관지 누공의 치료를 위하여 근처적 수술은 대부분 불가능하므로 고식적 치료법이 여러방법으로 시도되어 왔다⁴⁾. 그러나 대부분 병변이 상당히 진행되어 있고, 전신상태도 불량하여 수술자체에 따른 이환율이 매우 높고 수술후 생존기간도 짧기 때문에 대개는 비수술적 방법을 선호하게 된다¹⁾.

식도-기관지 누공의 비수술적 치료로는 조직접착제와 인공식도관을 이용하는 방법이 일반적이나 조직접착제는 내시경내에서 굳어 버리거나, 누공의 직경이 큰 경우에는 기관지내로 새어나와 기관지의 협착 및 폐색을 일으킬 수 있는 등의 여러가지 부작용으로 만족할 만한 결과를 얻지 못하고 있다⁵⁾. 수술이 불가능한 악성 식도협착에 사용되던 종래의 인공식도관은 식도-기관지 누공의 치료에는 효과가 만족스럽지 못한 경우가 흔하며, 특히 종양에 의해 기도가 눌러 있을 때는 인공식도관의 삽입으로 호흡부전이 유발될 수 있고, 식도내에 협착부위가 없거나 식도가 너무 넓은 경우에는 인공 식도관이 채자리에 고정되기가 힘들어 누공의 완전폐쇄가 어렵고 시술에 따른 사망율도 많게는 15%까지 보고되고 있다^{6~10)}.

이런 단점을 개선하고 식도-기관지 누공의 완전폐쇄를 위해 여러가지 새로운 모양의 인공식도관들이 고안되어졌으며^{8,11~13)}, 그중 Lux등¹⁴⁾이 개발한 Cuffed 인공식도관이 새로운 치료법으로 좋은 치료 성적을 보이고 있다. 국내에서는 심등¹⁵⁾이 식도-기관지 누공을 동반한 악성 식도협착에서 Cuffed 인공식도관을 이용한 내시경적 삼관술을 시행하였던 1예의 보고가 있으나, 비협착성 식도-기관지 누공에서의 사용은 아직 보고된 바가 없다.

이에 저자들은 비협착성 식도-기관지 누공을 동반한 악성 림프종 환자에서 Cuffed 인공식도관을 이용한 내시경적 삼관술을 시행하여 양호한 경과를 보였던 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 김○○, 여자, 64세

주 소: 두달간의 기침 및 호흡곤란

현병력: 환자는 평소에 비교적 건강하게 지내오다가 내원 2개월전부터 객담이 동반된 기침과 애성(hoarseness)이 발생되었고, 내원 1개월전부터 상기 증세가 더욱 심해지면서 호흡곤란까지 있어 개인 병원에서 폐암으로 진단받고 본원에 내원하였다.

과거력: 내원 1년전에 심와부 동통 및 소화불량으로 개인 병원에서 상부위장관내시경 검사를 실시한 후 소화성 궤양으로 진단받고 약물치료 받았으며, 그외에 특이 사항은 없었다. 하루 한갑씩 40년간의 흡연력이 있었으나 과다한 음주력은 없었다.

가족력: 특이 사항 없음

이학적 소견: 입원당시 혈압은 110/70 mmHg, 맥박수 88회/분, 호흡수 23회/분, 체온은 36.7°C였고, 의식은 명료하였으나, 급성병색을 보였다. 결막은 창백하였고, 공막에 황달은 없었으며, 경부 림프절이 촉지되었다. 흉부소견상 호흡음은 전폐야에서 거칠었고, 좌측폐하에서 수포음이 청진되

었으며, 심음은 규칙적이었고, 심잡음은 들리지 않았다. 복부소견상 압통은 없었으며, 장기나 종물은 촉진되지 않았다. 직장수지검사상 특이 소견은 없었다.

검사 소견: 입원당시 시행한 말초혈액검사상 백혈구 8,800/mm³, 혈색소 7.7 g/dl, 적혈구용적 23.1%, 혈소판수 365,000/mm³이었으며, 소변검사는 정상이었으며, 대변의 잠혈검사는 음성이었다. 혈청생화학검사상 총단백 6.8 g/dl, 알부민 2.9 g/dl, 총빌리루빈 0.2 mg/dl, alkaline phosphatase 147 IU/L, SGOT 21 IU/L, SGPT 24 IU/L, BUN 17.2 mg/dl, creatinine 0.5 mg/dl이었다. Alpha-fetoprotein과 CEA는 정상 범위였다.

방사선 및 내시경 검사 소견: 내원당시 시행한 흉부 X-선 검사상 우측 중엽의 허탈과 양측폐문부의 비대, 우측 기도주위 림프선 비대와 좌측하엽의 경화가 관찰되었다. 흉부전산화 단층촬영술상 좌측상엽과 우측중엽의 기관지가 폐색되어 있었고, 광범위한 폐문부 및 종격동의 림프선 비대와 심낭삼출액이 관찰되었다(Fig. 1). 식도조영술상 직경 1 cm 가량의 식도-기관지 누공으로 식도와 기관지가 모두 조영되었고(Fig. 2), 기관지내

시경 검사상 좌측 주기관지에 누공과 종양으로 보이는 병소가 관찰되어 조직검사를 실시하여 악성 림프종으로 진단되었다. 식도내시경 검사상 식도는 협착된 부위없이 정상 점막을 보였으나 상중절 치료부터 25 cm되는 중부식도의 좌측벽에 누공이 관찰되었다(Fig. 3).

치료 및 임상경과: 환자는 아주 소량의 물을 마셔도 발작적으로 기침이 있고, 호흡곤란을 느껴, 내시경적으로 직경이 15 mm, 길이가 85 mm인 Cuffed 인공식도관(Wilson-Cook Medical Inc., N.C.)을 누공이 있는 부위에 삽입하였다(Fig 4-a, b, c, Fig 5-a, b).

Cuffed 인공식도관은 Wilson-Cook 인공식도관의 외면에 거품고무로된 cuff를 부착시킨 것으로 거품고무에 연결된 도관으로 공기를 빼내었을

Fig. 1. Chest C-T scan showed obstruction of left upper lobe & right middle lobe bronchus, diffuse enlargement of both hilar and mediastinal lymph node, and pericardial effusion.

Fig. 2. Esophagogram showed visualization of trachea and bronchus through the esophago-tracheal fistula.

Fig. 4-a, b. The cuffed esophageal prosthesis was intubated into mid-esophagus by endoscopy.
Fig. 4-c. Chest P-A showed an inserted state of esophageal endoprosthesis.

때의 직경은 2.6 cm이고, 식도내 삽관후 도관을 제거하여 거품고무가 공기에 의하여 확장되면 직경이 4 cm으로 증가하게 된다(Fig 6-a, b). 삽관 후 시행한 추적 식도조영술상 식도-기관지 누공은 완전히 폐쇄되어 있었고, 기침 및 호흡곤란 등의 증상도 호전되어 만족스런 결과를 얻을 수 있었다.

고 안

식도-기관지 누공은 종격동을 침범한 암에서 발생되어 치료하지 않으면 대부분의 환자에서 1개월 내에 급격히 사망할 수 있는 치명적인 합병증으로 식도암 환자의 4.9%, 폐암환자의 0.16%, 기관암의 14.7%에서 관찰할 수 있으며¹⁾, 드물게 식도의 평활근육종²⁾, 종격동 림프절을 침범한 악성 림프종 환자에서 볼 수 있다^{1,3)}. 식도-기관지 누공은 암이 주위 조직으로 침윤하는 과정중에 자연적으로 발생할 수 있고, 항암약물요법이나 방사선요법 등의 치료과정에서도 발생할 수 있다^{16,17)}. 본 증례

는 종격동에 발생한 악성 림프종이 암의 경과도중에 주위조직으로 침윤하여 자연적으로 누공이 발생되었으며, 과거에 항암약물요법이나 방사선요법 등의 치료를 받은 적은 없었다. 림프종에 의한 식도-기관지 누공은 식도의 편평상피암으로 인한 경우보다 예후가 좋으므로 환자의 예후를 향상시키기 위한 적극적인 노력이 필요하리라 사료된다.

식도-기관지 누공의 증상은 삼킨 침이나 고형식 또는 유동식이 기관지내로 들어가 발생하는 기침이 주증상이며, 반복되는 흡인에 의해 질식과 폐렴, 폐허탈, 폐농양등이 빈번하게 발생된다. 식도-기관지 누공은 기관(trachea) 또는 기관지 수상구조(bronchial tree)와 식도 사이에 생긴 누공을 모두 포함하며, 분지별 발생율은 식도-기관지 누공(esophago-tracheal fistula)이 52~57%, 식도-기관지 누공(esophago-bronchial fistula)이 37~40%, 식도-기관세지 누공(esophago-bronchiolar fistula)이 3~11%로 보고되고 있다¹⁾.

식도-기관지 누공의 발생이 곧 종양이 전신에

퍼진 것을 의미하지는 않으나, 상태의 악화가 암 자체보다는 반복되는 호흡기도의 감염에 기인하므로 이들 환자에서 식도-기관지 누공은 가능한 빠른 진단과 적절한 치료가 필수적이다¹⁸⁾. 치료로는 식도암 국소절제, 식도 환치술 및 우회술 등의 수술적 치료와 지지요법, 조직접착제 사용, 식도내 삽관술 등의 비수술적 치료가 있다. 식도 환치술 및 우회술은 수술후 고형식까지 먹을 수 있고¹⁹⁾, 수술 생존률에 대한 성적도 비교적 양호하여²⁰⁾ 환자가 견딜 수만 있으면 효과적인 치료방법중의 하나이다⁴⁾, 악성 식도-기관지 누공이 동반된 환자는 대부분 병변이 상당히 진행되어 있고, 전신상태도 불량하여 대개 완치적 절제술은 불가능하며 수술자체에 따른 이환율도 매우 높다¹⁾.

지지요법으로 레빈튜브 삽입이나 위루술을 통해 영양공급을 할 수 있으나 침의 흡입이나 위액의 역류를 막지는 못한다. 식도-기관지 누공에 대한 방사선치료의 영향은 아직 논란의 대상이 되고 있으며, Lewinsky 등²¹⁾은 식도암환자에서 방사선 치료는 식도-기관지 누공을 악화시키므로 식도-기관지 누공 우회술을 실시한 후에 방사선 치료를 해야한다고 주장하였으나, 오히려 낮은 선량의 방사선에 노출되면 소화관 세포들의 재생 및 성장이 촉진되므로 식도-기관지 누공 환자에 대한 방사선 치료의 정당함을 주장하는 반론도 있다^{1, 22)}. 항암제는 기관지 주위의 종양을 파괴하고 위축시키므로 식도-기관지 누공을 유발하거나 악화시킬 수 있다. 식도-기관지 누공의 비수술적 치료로 조직접착제를 누공을 막거나 인공 식도관을 고정시키기 위하여 내시경적으로 사용되기도 하지만 잘못된 위치에 인공식도관을 고정시킬 수 있고, 내시경내에서 급속히 굳어버리거나, 누공의 직경이 큰 경우 기관지로 새어나와 기관지의 협착 및 폐색을 유발시킬 수 있어서 만족할 만한 결과를 얻지 못하고 있다^{5, 23)}.

수술이 불가능한 악성식도협착에 사용되는 종래의 인공식도관은 식도-기관지 누공에는 효과가 만족스럽지 못한 경우가 흔하며, 특히 식도협착과 함께 종양에 의해 기도가 눌러 있을 때는 인공식

도관의 삽입으로 호흡부전이 유발될 수 있고, 식도내에 협착부위가 없거나 너무 넓은 경우에는 인공식도관이 제자리에 고정되기가 힘들어 누공의 완전 폐쇄가 어려웠다. 이러한 단점을 개선하고 식도-기관지 누공의 완전폐쇄를 위해 여러가지 새로운 모양의 인공식도관들이 고안되어졌으며, 그중 근위부 누두(funnel)와 누공부위의 몸체를 넓힌 특수한 모양의 인공식도관은 경구적 삽입의 성공율이 80~90%에 이른다^{6, 8)}. 그외에 삽입후 커지는 polyvinyl alcohol sponge를 감싼 인공식도관, 나선형의 만입을 만든 인공식도관이 개발되었고, 접착제로 인공식도관을 고정시키는 방법등이 사용되어졌다^{12, 13)}.

Lux 등¹⁴⁾이 개발한 cuffed 인공식도관은 협착부위 상부에 누공이 위치하거나, 협착부위가 없는 식도-기관지 누공에 사용하여 성공적으로 악성누공을 폐쇄시킬 수 있는 우수한 치료법으로 소개되었다^{24~26)}. 이러한 cuffed 인공식도관은 Wilson-Cook 인공식도관의 외면에 거품고무 cuff를 부착시킨 것이며, 거품고무가 공기에 의해 확장되지 않을 때는 직경이 2.6 cm이지만, 식도내 삽관후 공기에 의해 확장되면 직경이 4 cm으로 커지므로 협착부위가 없어도 악성누공을 폐쇄시킬 수 있고, 주위조직의 압력에 따라 직경이 적절히 변할 수 있어 압력에 의한 조직괴사없이 누공을 완전히 폐쇄시킬 수 있는 장점을 갖고 있다²⁷⁾. 시술자체도 다른 치료방법에 비해 비교적 간단하여 빠른 시간 내에 시술할 수 있으며, 치료후 재원기간도 짧고, 전신상태가 불량한 환자에도 사용될 수 있다.

Cuffed 인공식도관은 수술이 불가능한 식도-기관지 누공 환자에서 누공이 식도상부 괄약근에서 적어도 2 cm 이상의 거리에 있고 유도철선이 협착부위를 통과할 수 있으며 적어도 4주 이상의 생존이 기대될 때 사용해 볼 수 있는 효과적인 치료법이다¹⁵⁾. Cuffed 인공식도관 삽입의 합병증은 종래의 인공식도관을 이용한 식도내 삽관술보다 현저히 적으며 Hordijk 등²⁴⁾은 식도-기관지 누공을 가진 10명의 환자에게 Cuffed 인공식도관을 삽입하여 한명에서 삽입 30일 후에 누공의 재발

이 있었고 다른 한명에서 심한 기관지 압박이 있었을 뿐 그외의 환자들에서는 증상의 호전과 함께 특별한 합병증을 발견할 수 없었다고 보고하였다.

결론적으로 Cuffed 인공식도관은 종래의 표준형 인공식도관의 삽입으로 해결이 안되는 악성 식도-기관지 누공에 사용할 수 있는 비교적 간편하고, 안전하며, 효과적인 비수술적 치료법으로 환자의 예후와 삶의 질을 향상시키는데 도움을 줄 수 있을 것으로 기대된다.

결 론

저자들은 기침과 호흡곤란을 주소로 내원한 비협착성 식도-기관지 누공이 동반된 악성 입과종 환자에서 내시경적으로 cuffed 인공식도관을 삽입한 후 증상의 호전과 함께 양호한 경과를 보인 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Martini N, Goodner JT, D'Angio GJ, Beat- tie EJ: *Tracheoesophageal fistula due to cancer. J Thorac Cardiovasc Surg* 59: 319, 1970
- 2) Godeau P, Bouhali R, Pagnez G: *An unusual cause of recurrent pericarditis; esophageal leiomyosarcoma. Sem Hop Paris* 56: 187, 1980
- 3) Lambert A: *Malignant tracheoesophageal fistula secondary to Hodgkin's disease. J Thorac Cardiovasc Surg* 69: 820, 1975
- 4) Wong J: *management of carcinoma of the oesophagus: Art or science. J R Coll Surg Edinb* 26: 138, 1981
- 5) Ell CH, Riemann JF, Demling L: *Endoscopic occlusion of a tumoral esophago-mediastinal fistula by a fast-hardening aminoacid solution. Gastrointest Endosc* 32: 287, 1986
- 6) Brandt-G, Hartog Jaeger VFCA, Tytgat GNJ: *Palliative intubation of malignant esophagogastric obstruction. J Clin Gastroen- terol* 9: 290, 1987
- 7) Gasparri G, Casalego PA, Camandoma M, Dei Poli M, Salizzoni M, Ferrarotti G, Bertero D: *Endoscopic insertion of 248 endoprotheses in inoperable carcinoma of the esophagus and cardia: short-term and long-term results. Gastrointest Endosc* 33: 354, 1987
- 8) Buess G, Schellong H, Komerz B, Grussner R, Junginger TH: *A modified prosthesis for the treatment of malignant esophagotracheal fistula. Cancer* 61: 1679, 1988
- 9) Weaver RM, Matthews HR: *Palliation and survival in malignant oesophago-respiratory fistula. Br J Surg* 67: 539, 1980
- 10) Valbuena J: *Malignant oesophago-pulmonary fistula treated by fibre-optic intubation of a prosthesis. Gastrointest Endosc* 31: 281, 1985
- 11) Brandt-gradel, van den V, den Hartog Jager FCA, Tytgat GNJ: *Palliative intubation of malignant esophagogastric obstruction. J Clin Gastroenterol* 9: 290, 1987
- 12) Robertson CS, Atkinson M: *A modified prosthetic oesophageal tube to manage malignant oesophageal-respiratory fistula. Lancet* 2: 949, 1986
- 13) Wang PY, Yeh TJ, Chen CL: *A spiral grooved endoesophageal tube for the management of malignant esophageal obstruction. Ann Thor Surg* 39: 503, 1985
- 14) Lux G, Wilson D, Demling L: *A cuffed tube for the treatment of oesophageal-bronchial fistula. Endoscopy* 19: 28, 1987
- 15) 심찬섭, 문종호, 이준성, 이문성, 김진홍, 조성원: 식도-기관지 누공을 동반한 악성식도 협착에서 Cuffed 인공식도관의 내시경적 삽입술. *대한소화기내시경학회지* 12: 221, 1992
- 16) Duranceau A, Jamieson G: *Malignant tracheo-esophageal fistula. Ann Thorac Surg* 37: 346, 1984
- 17) Graham DY: *Dilatation in the management of benign and malignant strictures of the oesophagus. In Silvis (ed): Therapeutic Gastrointestinal Endoscopy. Igaku-Shoin, New York* 1, 1985

- 18) Little AG, Ferguson MK, DeMeester TR, Hoffman PC, Skinner DB: *Esophageal carcinoma with respiratory tract fistula. Cancer* 53: 1322, 1984
- 19) Mannell A, Plant M: *The management malignant oesophago-airway fistulae. Aust NZ J Surg* 53: 31, 1983
- 20) Orringer MB, Sloan H: *Substernal gastric bypass of the excluded thoracic esophagus for palliation of esophageal carcinoma. J Thorac Cardiovasc Surg* 70: 836, 1975
- 21) Lewinsky BS, Annes GP, Mann SG, Green JP, Vaeth JM, Schroeder AF: *Carcinoma of the esophagus: An analysis of results and of treatment techniques. Radiation Research* 61: 192, 1975
- 22) Stebbing A: *Hormeosis-the stimulation of growth by low levels of inhibitor. Sci Total Environ* 22: 213, 1982
- 23) Hartog Jager FCA den, Bartelsman JFWM, Tytgat GNJ: *Palliative treatment of obstructing esopagogastric malignancy by endoscopic positioning of a plastic prosthesis. Gastroenterology* 77: 1008, 1979
- 24) Hordijk ML, Dees J, Blankenstein M van: *The management of malignant esophago-respiratory fistulas with a cuffed prosthesis. Gastroenterology* 77: 1014, 1979
- 25) Smith JL, Michaletz PR, Tabibian N, Schaquartz JT, Graham DY: *Improved palliation of a respiratory esophageal fistula with a cuffed esophageal prosthesis. Am J Gastroenterol* 11: 1175, 1985
- 26) Spinelli P, Lavarini EJ, Meroni E: *A new endoprosthesis for the treatment of esophago-bronchial fistulas. Gastrointest Endosc* 35: 555, 1989
- 27) Wenk H: *Dislodgement of a cuffed tube for the treatment of oesophagobronchial fistula. Endoscopy* 20: 336, 1988

◇◇ 칼라사진 설명 ◇◇

Fig. 3. Esophagoscopy showed an esophago-tracheal fistula on mid-esophagus.

Fig. 5-a, b. Esophagoscopy showed an inserted state of esophageal endoprosthesis.

Fig. 6-a, b. The cuffed esophageal prosthesis in deflated and inflated state.

◇ 관련사진 게재: 421 쪽 ◇

◇ 이광재 외 7인 논문사진(본문게재 : 414~420 쪽) ◇
