

중격동 농양이 동반된 자발성 점막하 식도 박리 1예

아주대학교 의과대학 소화기내과학교실, *병리학교실

최승준 · 이광재 · 김영배* · 심진영 · 이기명 · 함기백 · 김진홍 · 조성원

A Case of Spontaneous Submucosal Dissection of the Esophagus Accompanying Mediastinal Abscess

Seung Joon Choi, M.D., Kwang Jae Lee, M.D., Young Bae Kim, M.D.*, Jin Yeong Sim, M.D., Ki Meong Lee, M.D., Ki Baik Hahm, M.D., Jin Hong Kim, M.D. and Sung Won Cho, M.D.

Departments of Gastroenterology and *Pathology, Ajou University School of Medicine, Suwon, Korea

자발성 점막하 식도 박리는 직접적 외상이나 이물질 및 기계 조작 등의 뚜렷한 원인 없이 점막 열상을 통해 점막하층과 근육층 사이가 길게 박리되는 드문 질환으로 아직까지 명확한 원인은 밝혀져 있지 않다. 점막하 벽내에 혈종을 유발하며 식도염 소견을 나타내는 경우는 있지만 중격동 내에 농양을 형성하는 경우는 매우 드물다. 대부분 박리 및 혈종에 의한 흉통, 연하곤란 등의 증상으로 병원을 방문하며, 금식과 수액 요법 등의 보존적 치료만으로도 예후가 좋다. 저자들은 흉골하 동통, 연하곤란 및 연하통으로 개인의원에서 치료받다가 전원된 54세 남자 환자에서 심한 점막하 식도 박리와 함께 중격동 농양이 있어 부분적 식도 절제술, 배액 및 항생제 치료로 호전된 1예를 경험하였기에 보고한다.

색인단어: 자발성 점막하 식도 박리, 식도, 중격동 농양

서 론

자발성 점막하 식도 박리(spontaneous submucosal dissection of the esophagus)는 뚜렷한 원인 없이 식도의 점막하층과 근육층이 길게 박리되는 질환으로, 박리되면서 생긴 내강에 혈종이 형성되어 흉통 및 연하곤란, 토혈 등의 증상이 생길 수 있다. 주로 상부 또는 중부식도에서 발생하므로 구토, 구역 후에 발생하는 식도 손상인 Boerhaave 증후군이나 Mallory-Weiss 증후군과 구별된다.¹⁻³ 한편 식도 천공은 주로 외상이나 기기 조작에 의한 경우가 흔하고, 자발성인 경우는 Boerhaave 증후군과 식도 이물에 의한 것이 가장 많으며 드물게 식도 종양이나 식도 결핵 등에 의한 것이 보고되어 있

다.^{4,5} 자발성 점막하 식도 박리는 식도벽 내에 국한된 천공이기 때문에 중격동 내에 농양을 형성하는 경우는 매우 드물며, 따라서 일반적으로 수술적인 치료는 필요하지 않다.⁶ 현재 국내에서는 1998년 최 등⁷이 보고한 이후 총 7예의 증례 보고가 있었다.⁷⁻¹³ 대부분의 환자에서 보존적 치료로 예후가 양호하였으며, 이 중 중격동 농양을 형성한 경우는 없었다. 저자들은 자발성 점막하 식도 박리의 소견과 함께 중격동 내 농양이 있어서 부분적 식도 절제술, 배액 및 항생제 치료로 호전된 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

54세 남자가 갑자기 발생한 흉골하 동통, 연하곤란 및 연하통으로 개인병원에 입원하여 10일간 보존적 치료를 받았으나 호전이 없어서 본원으로 전원되었다. 내원 당시에 발열, 오한, 호흡곤란, 구토, 설사, 복통은 없었으나, 전신 쇠약감과 피로감을 호소하였다. 과거력에서 5년 전과 2년 전에 각각 당뇨병과 고혈압으로 약물

접수 : 2005년 1월 12일, 승인 : 2005년 7월 7일
연락처 : 이광재, 경기도 수원시 영통구 원천동 산 5번지
우편번호: 443-721, 아주대학교 의과대학 소화기내과학교실
Tel: 031-219-5102, Fax: 031-219-5999
E-mail: kjeleemd@hotmail.com

복용 중이었고, 최근에 알콜성 간질환으로 약물치료 중이었다. 가족력에서 특이 소견은 없었으며, 사회력에서 2~3년간 매일 막걸리 2~3병을 마시고 있었다. 내원 당시 환자는 만성 병색이었고, 활력 징후는 혈압 130/80 mmHg, 맥박수 92회/분, 호흡수 20회/분, 체온은 36.7°C였다. 피부 검사에서 특이한 소견은 없었고, 공막에 황달은 없었으며, 결막은 창백하지 않았다. 혀와 입술은 말라있지 않았고, 경부 림프절 종대는 없었다. 흉부 검사에서 호흡음과 심음은 정상이었으며, 복부 검사에서 장음은 정상이었으나, 촉진시 간비대와 우상복부에 경도의 압통이 있었다. 직장수지검사서 종괴나 혈

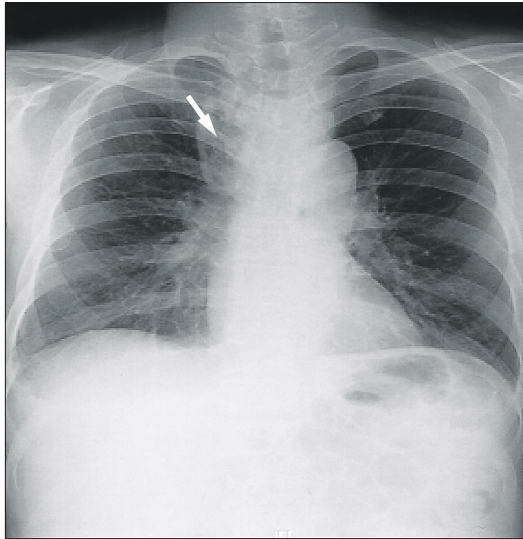


Figure 1. Chest x-ray. Right paratracheal mediastinal widening containing air shadows (arrow) are noted.

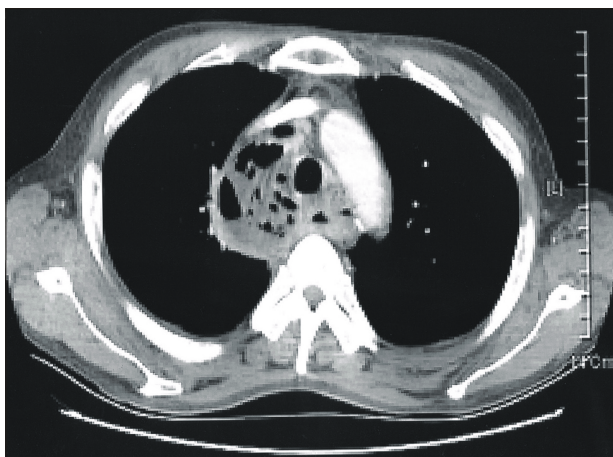


Figure 2 Chest CT. Extensive abscess is noted in the entire mediastinum.

변 소견은 없었다.

내원 당시 말초혈액검사서 백혈구 6,660/mm³(중성구 70%), 혈색소 12.7 g/dL, 헤마토크릿 36.6%, 혈소판 168,000/mm³이었고, 적혈구반응침강검사 55 mm/hr, CRP 5.22 mg/dL이었다. 생화학검사서 혈액요소질소 9.1 mg/dL, 크레아티닌 0.6 mg/dL, Na 134 mmol/L, K 4.8 mmol/L, AST/ALT 42/39 IU/L, 총 빌리루빈 2.4 mg/dL, 총단백 6.0 g/dL, 알부민 2.6 g/dL, 아밀라제 50 IU/L였다. 단순흉부촬영에서 우측 종격동의 증대와 비정상적인 공기 음영이 있었다(Fig. 1).

흉부 전산화단층촬영에서 종격동 내에 공기음영을 동반한 괴사성 농양 소견이 있었으며(Fig. 2), 식도 조영술에서 우측 중부식도에서 원위부로 가성 관강이 관찰되는 이중관(double barrelled) 소견이 있었다(Fig. 3). 상부위장관 내시경검사시 앞니에서 30 cm 부위의 식도 우측 부위에 1 cm 크기의 구멍이 있었고, 그 이하 부위는 점막으로 덮여있었다. 구멍 속으로 들여다 보면 식도의 근육층을 관찰할 수 있었다. 앞니에서 35 cm 부위의 식도에서부터 식도위접합부까지 걸쳐있는 경계가 명확한 크고 깊게 파인 듯한 모양의 병변이 같은 우측에 있었으며 병변의 기저부위는 구멍 속에서 관찰되는 근육층과 같은 모양을 하고 있었다(Fig. 4A, B).

종격동 농양이 합병된 자발성 점막하 식도 박리로 진단하여 부분 식도절제술, 식도 전환술, 농양 배액술을



Figure 3. Esophagography. Double barrelled strip distally from the mid-esophagus is seen in the right side of the esophagus.

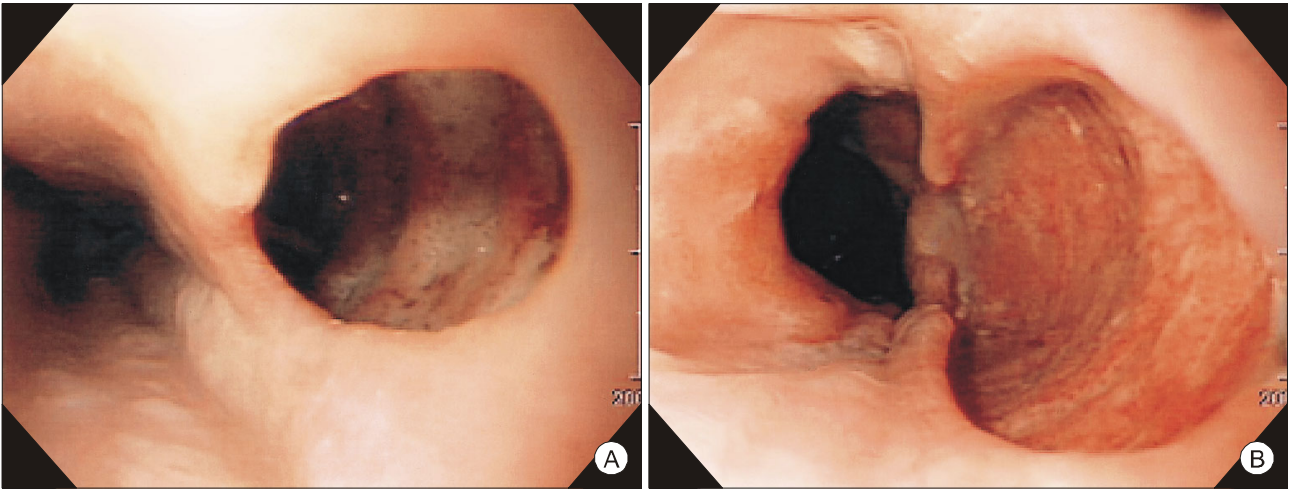


Figure 4. Endoscopic findings of the esophagus. It shows large opening revealing false and true lumen on the mid-esophagus (A) and a well-circumscribed deeply excavated lesion on the distal esophagus (B).

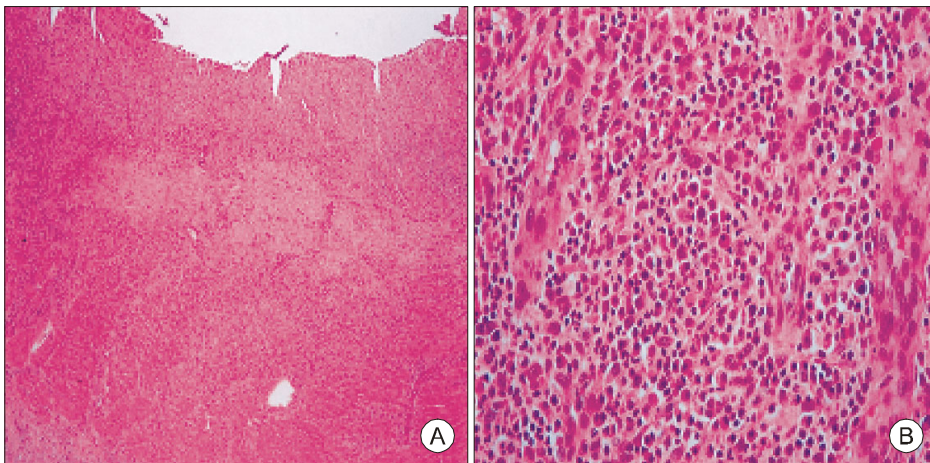


Figure 5. Microscopic findings of surgical specimens. (A) Chronic inflammation with fibrosis is observed in submucosal and muscle layers (H&E stain, × 80). (B) Nonspecific inflammatory cells are infiltrated (H & E stain, ×400).

시행하였고, 항생제를 투여하였다. 배농액의 균 배양 검사에서 *Klebsiella pneumoniae*가 배양되었으며, 수술 후 식도 조직검사에서는 섬유화된 만성 염증 소견과 비특이적인 염증세포의 침윤 소견만이 있었다(Fig. 5 A, B). 환자는 특별한 증상없이 호전되어 퇴원하였으며 외래에서 관찰 중이다.

고 찰

자발성 점막하 식도 박리는 드문 질환으로 국내에서는 지금까지 총 7예가 보고되어 있다.⁷⁻¹³ 식도 박리는 점막하 출혈 및 혈종에 의해 점막하층과 근육층이 박리되는 상태를 의미하며, 동의어로는 식도벽내 혈종 (intramural esophageal hematoma), 식도벽내 파열(intramural esophageal perforation), 식도졸증(esophageal apoplexy)

등이 있다. 지금까지의 국내외 보고에 의하면 외국 보고에서는 주로 고령의 여성에 흔하다고 알려졌으나, 국내 보고에서는 본 증례와 같이 남성에서 더 흔하였으며, 병인에 있어서는 구토, 식도 이물, 식도의 운동장애, 내시경적 경화술, 기구 조작, 약제(예: warfarin, aspirin), 출혈성 경향을 갖는 전신 질환(만성 신부전, 혈우병, 백혈병) 등이 제시되어 왔으나 명확한 원인은 아직까지 밝혀져 있지 않다.¹⁴ 흔하게 나타나는 임상 증상으로는 배부로 방사되는 갑작스런 흉통과 소량의 토혈 그리고 연관곤란 등이 있으며, 일부에서는 연하통을 호소하기도 한다. 가장 흔한 증상인 흉통은 일반적으로 갑작스럽게 나타나며 상복부 동통을 수반하는 경우가 많다. 검사실 소견은 대부분 정상인 경우가 많으며, 내시경적 검사 및 방사선학적 소견으로 진단하는 경우가 많다. 식도 조영술에서는 박리에 의해 형성된 가성내강과 식

도강으로 조영제가 유입되면서 식도 내강이 두겹으로 관찰되는 소견이 전형적이며, 이에 사용되는 조영제로는 천공 부위를 따라 종격동에 흘러 들어가서 염증을 유발 또는 악화시킬 수 있는 barium보다는 gastrograffin과 같은 수용성 조영제의 사용을 추천하고 있다.^{15,16} 상부위장관내시경 소견은 검은색 또는 적자색의 점막하 병변에 의해 식도 내강으로의 돌출 및 식도 내강의 협착이 전형적이다.

본 증례에서는 환자가 갑자기 발생한 흉골하 동통, 연하곤란, 연하통으로 개인병원을 방문하였으며 만성적인 알콜 음주력이 있고, 평상시 소화기 증상을 자주 호소하였으므로 식사 제한 및 항생제 치료 등의 보존적 치료만을 10일간 실시하였다. 따라서 급성기가 지난 상황에서 본원으로 전원된 경우였다. 본원에 내원시에는 연하곤란 및 연하통 외에 특기할 만한 증상이나 전신 징후가 없었으며 상부위장관내시경 검사에서도 전형적인 혈종의 소견은 없었고, 이미 혈종이 빠져나간 후의 깊게 파여있는 궤양성 병변과 가성내강의 입구로 추측되는 개구가 있었다. 광범위한 식도의 점막하 박리 후에 보존적인 요법으로 호전되는 과정을 내시경으로 추적 관찰한 보고에서 이렇게 변해가는 소견이 확인된 바가 있다.¹⁰ 깊은 식도 궤양을 형성할 수 있는 크론병, 식도 결핵, 바이러스성 식도궤양 등의 다른 식도 질환들의 감별을 위하여 대장내시경, 소장조영술을 시행하였으나 특기할 만한 소견은 없었다. 또한 수술 치료 후 1년간 추적 관찰하였으나 특별한 약물치료 없이도 증상이나 내시경적 재발 소견 등이 없었다는 사실은 본 증례의 궤양이 재발이 가능한 크론병 등의 질환보다는 일시적인 원인에 의한 식도 손상, 즉 식도의 자발성 점막하 박리의 가능성이 높음을 시사해 주고 있다. 본 증례는 지금까지 보고된 자발성 점막하 식도 박리의 증례들과 달리 종격동 농양이 합병되어 있는 것이 특징이다. 자발성 점막하 식도 박리의 경우에는 대부분 식도 천공으로까지 이어지지는 않지만 박리의 정도가 심한 경우에는 본 증례에서와 같이 식도 열상을 통해 종격동 농양으로 확산될 수도 있음을 보여준다.

한편 본 증례에서의 식도 점막하 박리의 원인에 대해서는 여러 가지 추정해 볼 수 있으나 지금까지 박리의 기전으로 제시되어 온 출혈성 소인을 보이는 만성 질환(혈소판 감소증, 만성 신부전, 혈우병 등), 구토에 의한 Mallory-Weiss 증후군과 Boerhaave 증후군 같은 식도 손상, 그리고 비정상적 연하기전의 세 가지 중에서 만성적인 과다한 음주력으로 미루어 환자가 확실한 기억이 나지 않는다고 하였지만 음주 후의 구토로 인한

식도 손상의 가능성이 가장 높다고 할 수 있다. 식도의 손상이 의심되는 경우에는 내시경과 식도 조영술 외에도 종격동 질환의 합병 여부 및 다른 질환들과의 감별을 위해 단순흉부촬영 및 흉부전산화단층촬영이 필요하고, 식도내압검사는 식도 박리의 원인 규명과 치료 후에 발생할 수 있는 협착, 부조화 수축(in-coordinate contraction)과 같은 합병증을 확인하기 위해 시행해 볼 수 있다.¹

자발성 식도 점막하 박리의 치료는 대부분 금식과 수액 치료 등 보존적 요법으로 회복되며, 대부분의 증상은 보통 급격히 소실되지만 지속적으로 토혈, 식도 근층의 심한 혈종 소견을 보이는 경우와 식도 혈종이 식도 열상을 통해 종격동 혈종으로 확산되거나 식도 천공이 의심될 경우에는 수술이 필요할 수 있다. 본 증례에서 합병되었던 종격동 농양은 식도 혈종이 심한 식도 열상을 통해 종격동 혈종으로 확산된 후에 그것이 농양으로 발전된 경우로 추정된다. 내시경 조작하에 열치료 절개도를 이용하여 박리된 식도 점막을 절개하여 합병증 없이 증상을 호전시킨 증례가 보고되어 있고,¹⁷ 국내에서도 지속적으로 남은 격벽 제거를 위해 전기 소작술을 시행한 보고가 있다.^{13,15} 본 증례와 같이 종격동 농양이 합병된 경우에도 보존적 치료로 호전이 되는지는 보고된 바가 없으며, 따라서 본 증례는 수술 치료를 통해 천공 여부를 확인하고 농양을 배액하였다. 식도 천공이 의심되는 경우에 식도 조영술로는 경부 식도 천공의 50%, 흉부 식도 천공의 20~25%에서 양성으로 나타나지 않았다는 보고들^{15,16}이 있어서 식도 천공의 증상이 명확하지 않더라도 식도 내시경 소견상 종격동으로의 연결 가능성이 있는 개구 등이 보이거나 흉부 전산화단층촬영에서 식도 천공을 시사하는 종격동내 이상 소견이 있는 경우에는 식도 천공에 준해서 치료하는 것이 필요할 수 있다. 한편 식도 천공의 예후 인자 분석에 대한 국내의 보고¹⁸에 의하면 식도 천공의 가장 흔한 원인은 의인성으로 기구 조작 등에 의한 것이었고, 외상, 기도내 이물 등의 순이었다. 자발성 식도 천공에 있어서는 구토에 의한 식도 손상으로 생기는 Boerhaave 증후군이 가장 많았고, 식도암에 의한 것이 1예 있었다. 내시경에 의한 천공이 많다는 사실은 식도 박리의 환자에 있어 내시경 검사를 주저하게 만드는 요소로 작용할 수 있고, 실제로 이미 손상 받은 식도에 내시경을 시행함으로써 식도손상을 가중시켜 점막하 박리를 악화시키거나 전층 파열을 유발하여 종격동염을 일으킬 수 있다는 보고도 있으나¹⁹ 진단의 편의성과 식도 내부의 자세한 정보를 얻기 위해서 조심스럽게

시행한다면 위험하지 않으며 신속한 진단을 위해서 우선적으로 고려해 볼 만한 검사이다.¹⁷ 치료에 따른 추적 검사의 방법으로서 내시경은 반흔의 관찰이나 식도 염의 유무, 합병증 발생 여부 등을 위해서도 유용한 검사라 할 수 있다.

본 증례는 만성 알콜 음주력을 가진 환자에서 자발성 식도 점막하 박리와 함께 종격동 농양이 합병되어 있어서 수술적 치료, 배액 및 항생제 치료로 호전된 매우 드문 증례를 문헌고찰과 함께 보고한다.

ABSTRACT

Spontaneous submucosal dissection of the esophagus (SDE) is a rare disease, in which spontaneous submucosal spot bleeding or intramural hematoma leads to the tearing of the layers between submucosa and muscle of the esophageal wall without any definitive cause, and the pathogenesis of SDE has not been well documented yet. Typical symptoms of SDE are chest pain, hematemesis, dysphagia, and odynophagia. The laboratory tests are usually normal and symptoms could be mild and ambiguous, so the diagnosis of SDE is conducted with endoscopy or esophagogram in most cases. The prognosis of SDE is usually very good with just conservative cares such as fasting and fluid therapy. Esophageal perforation complicated by SDE is very rare because symptoms of SDE usually bring the patients to hospital before perforation. Recently, we experienced a case of a 54 year-old male showing the endoscopic findings of SDE and complicated mediastinal abscess probably following esophageal perforation. The patient had social history of chronic heavy alcoholic ingestion and had symptoms of substernal pain, dysphagia, and odynophagia. The patient recovered after partial esophagectomy, abscess drainage and antibiotic therapy. (*Korean J Gastrointest Endosc* 2005;31:97-101)

Key Words: Spontaneous submucosal dissection, Esophagus, Mediastinal abscess

참 고 문 헌

1. Steadman C, Kerlin P, Crimmins F, et al. Spontaneous intramural rupture of the esophagus. *Gut* 1990;31:845-849.
2. Kerr WF. Spontaneous intramural rupture and intramural hematoma of the oesophagus. *Thorax* 1980;35:890-897.
3. Shimada T, Kimura K, Higashi K, Maeda K, Obata S, Shido T. Spontaneous submucosal dissection of the esophagus. *Intern Med* 1993;32:795-797.
4. Hoover EL. The diagnosis and management of esophageal perforations. *J Natl Med Assoc* 1991;83:246-248.
5. Baldergroen MR, Lowe JE, Postlethwait RW. Diagnosis and recommended management of esophageal perforation and rupture. *Ann Thorac Surg* 1986;42:235-239.
6. McNamee CJ, Meyns BP, Singh G, Black T. Treatment of chronic contained spontaneous esophageal perforations. *Dis Esophagus* 2000;13:2-4.
7. Choi SC, Lee JI, Kim WS, et al. Spontaneous submucosal dissection of the esophagus: a case report. *Korean J Gastrointest Endosc* 1998;18:202-210.
8. Ko BM, Park GH, Hong SJ, et al. Spontaneous intramural hematoma of the esophagus. *Korean J Gastrointest Endosc* 1998;18:872-877.
9. Bak YT, Kwon OS, Yeon JE, et al. Endoscopic treatment in a case with extensive spontaneous intramural dissection of the oesophagus. *Eur J Gastroenterol Hepatol* 1998;10:969-972.
10. Jung KW, Lee OJ. Extensive spontaneous submucosal dissection of the esophagus: long-term sequential endoscopic observation and treatment. *Gastrointest Endosc* 2002;55:262-265.
11. Cho CM, Ha SS, Tak WY, et al. Endoscopic incision of a septum in a case of spontaneous intramural dissection of esophagus. *J Clin Gastroenterol* 2002;35:387-390.
12. Kwon DS, Moon JH, An JK, et al. A case of spontaneous submucosal dissection of the esophagus. *Korean J Gastrointest Endosc* 2003;26:141-145.
13. Yoon YM, Park JH, Hyun DW, et al. Endoscopic treatment of spontaneous intramural dissection of the esophagus: a case report. *Korean J Gastrointest Endoscopy* 2003;27:527-530.
14. Marks IN, Keet AD. Intramural rupture of the oesophagus. *Br Med J* 1968;3:536-537.
15. Dodds WJ, Stewart EJ, Vlymen WJ. Appropriate contrast media for evaluation of esophageal disruption. *Radiology* 1982;144:439-441.
16. Foley MJ, Ghahremani GG, Rogers LF. Reappraisal of contrast media used to detect upper gastrointestinal perforation: comparison of ionic water-soluble media with barium sulfate. *Radiology* 1982;144:231-237.
17. Murata N, Kuroda T, Fujino S, Murata M, Takagi S, Seki M. Submucosal dissection of the esophagus; a case report. *Endoscopy* 1991;23:95-97.
18. Chung IS, Song SY, Ahn BH, Oh BS, Kim SH, Na KJ. Analysis of prognostic factors in esophageal perforation. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2001;34:477-484.
19. Yeoh NT, McNicholas T, Rothwell-jackson RL, Goldstraw P. Intramural rupture and intramural hematoma of the oesophagus. *Br J Surg* 1985;72:958-960.