

박리성 벽내성 식도 혈종

— 1예 보고 —

최진욱* · 이성수* · 최 호* · 문종환* · 정상호*

Dissecting Intramural Hematoma of the Esophagus

— A case report —

Jin Wook Choi, M.D.*; Sung Soo Lee, M.D.*; Ho Choi, M.D.*; Jong Hwan Moon, M.D.*; Sang Ho Chung, R.N.*

Dissection intramural hematoma of the esophagus (DIHO) is a rare, but well-documented condition that is part of the spectrum of acute esophageal injuries; these include the more common Mallory-Weiss tear and Boerhaave's syndrome. This disorder is predominantly seen in women during their sixth or seventh decade and the disease has various etiologies, but the pathogenesis has yet to be clarified. The triad of symptoms for this disorder includes retrosternal pain, hematemesis and odynophagia. It is important to differentiate esophageal submucosal dissection from other disorders that have a similar appearance, such as Mallory-Weiss syndrome and esophageal perforation because the prognosis of DIHO is excellent with conservative therapy and these other diseases require surgical treatment. We report here on a case of a dissecting intramural hematoma of the esophagus that was preoperatively misdiagnosed as the submucosal tumor of the esophagus preoperatively, and it was confirmed by Video-assisted thoracic surgery.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2008;41:782-786)

Key words: 1. Esophageal surgery
2. Esophageal trauma
3. Hematoma

증 레

35세 여성이 4일간의 상복부의 통증 및 연하곤란을 주소로 본원 응급실로 내원하였다. 상기 여성은 평소 특이 질환 없이 지내 오다 최근 직장 문제 등으로 스트레스를 많이 받던 중 갑작스런 상복부에 타는 듯한 통증이 발생 하여 인근 병원 응급실을 방문하였으나 혈액학적 검사상 정상소견 보여 퇴원하였고 다음 날에도 같은 양상의 통증과 연하곤란이 지속되어 본원 응급실로 내원하였다. 내원 당시 생체징후는 정상이었고 혈액학적 검사에서도 정상

소견이었다.

내원 후 시행한 EGD, EUS상 앞니에서 26 cm에서 35 cm까지 균일하지 않은 에코음영의 종양이 발견되었고 (Fig. 1), 흉부단층촬영 및 PET-CT 결과 역시 점막하 종양 또는 식도근종이 의심되어 흉부외과로 수술 의뢰된 환자로 수술은 흉강경을 통하여 접근하였다(Fig. 2).

수술 시 소견은 하부 식도는 약간 커져 있었고 그 외 특이 소견은 없었다. 식도의 근육층을 박리하던 중 검붉은 혈종이 다수 관찰되었으며 점막층까지 박리하였으나 종괴는 발견되지 않았다. 반복적인 혈종 제거 및 세척 후에

*아주대학교 의과대학 아주대학교병원 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery Ajou University Hospital, Ajou University School of Medicine
†본 논문은 2007년 대한흉부외과학회 제39차 추계학술대회 포스터 발표되었음.

논문접수일 : 2008년 6월 10일, 심사통과일 : 2008년 7월 17일

책임저자 : 이성수 (443-721) 수원시 영통구 원천동 산 5번지, 아주대학교 의과대학 흉부외과학교실

(Tel) 031-219-5210, (Fax) 031-219-5215, E-mail: chestlee@ajou.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

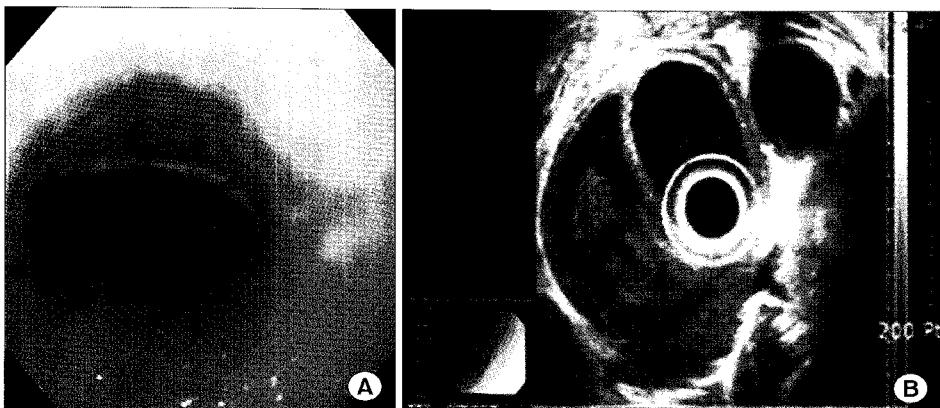


Fig. 1. (A) Preoperative Esophagogastroduodenoscopy and (B) Endoscopic Ultrasonography. EGD (A) shows an extrinsic compressive mass like lesion extending from 26 cm to 40 cm from the incisor with slightly dark colored mucosa. EUS (B) shows the heterogenous echo-geneic mass like lesion originated from the secondary layer suggesting esophageal submucosal tumor.

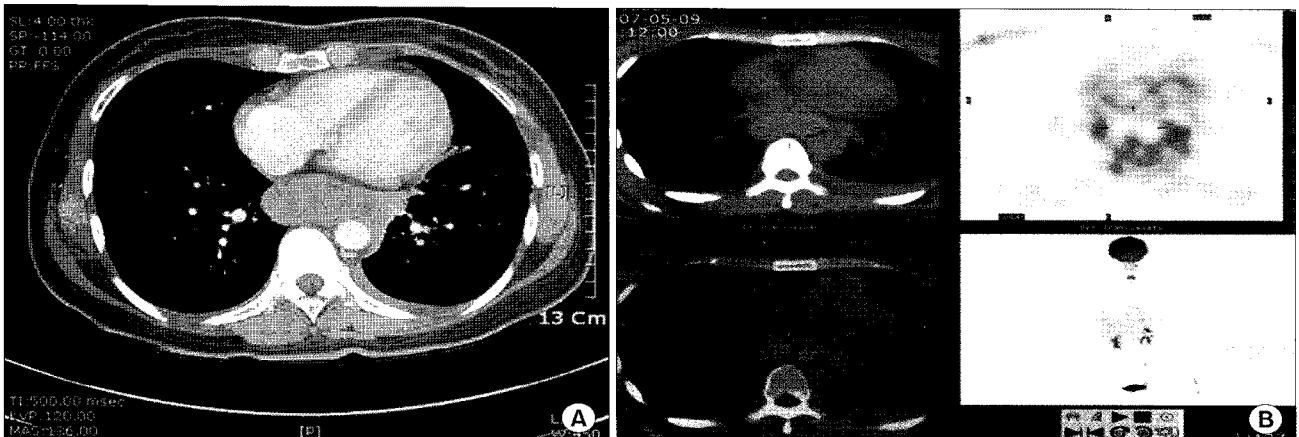


Fig. 2. (A) Preoperative Chest CT scan and (B) PET CT scan. Chest CT scan (A) shows about 10×5×2 cm sized esophageal encircling soft tissue mass suggesting esophageal submucosal tumor such as leiomyoma. PET CT scan (B) shows no FDG uptake in periesophageal round long mass suggesting benign mass.

도 종괴는 발견되지 않아서 박리성 벽내성 식도혈종으로 진단하고 수술을 끝낼 수 있었다(Fig. 3).

수술 7일 후 위내시경을 추적검사 결과 이전에 보이던 식도의 외부 압박 소견은 보이지 않으며 점막하 출혈로 인하여 점막 색깔이 약간 푸른색으로 보이는 것 이외에 특이 소견이 보이지 않아 정상적인 퇴원이 가능하였다(Fig. 4).

고 찰

박리성 벽내성 식도혈종(Dissecting intramural hematoma of esophagus)은 드문 질환으로 1968년에 Marks와 Keet[1]

에 의해 처음 보고되었다. 주로 중년 이후의 50~60대의 여성에서 발생하며 다양한 원인에 의해 유발될 수 있다. 박리성 벽내성 식도혈종의 동의어로는 식도 출증(esophageal apoplexy), 점막하 식도 박리(esophageal submucosal dissection), 또는 식도 벽내 파열(intramural hematoma of the esophagus)이 있다.

박리성 벽내성 식도혈종의 원인으로는 (1) 비정상적인 지혈(abnormal homeostasis), (2) 구토성(emeticogenic), (3) 외상성(traumatic), (4) 자발성(spontaneous) 그리고 (5) 대동맥 질환(aortic disease)과 연관되어 최근 분류하고 있다[2].

비정상적인 지혈과 관련된 전신 질환으로는 만성 신부전, 혈우병, 백혈병, 저혈소판증 등이 있으며 그 외 정상적

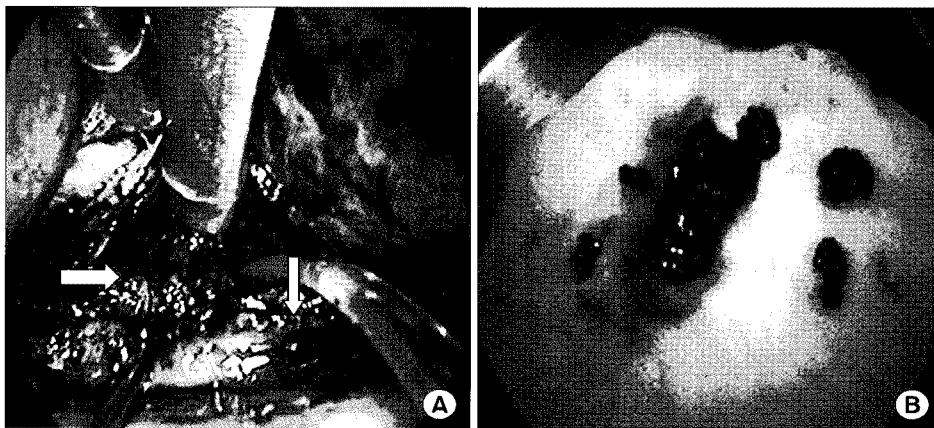


Fig. 3. Intraoperative finding. (A) Horizontal arrow (→): mucosal layer, vertical arrow (↓): muscular layer, (B) Hematoma.

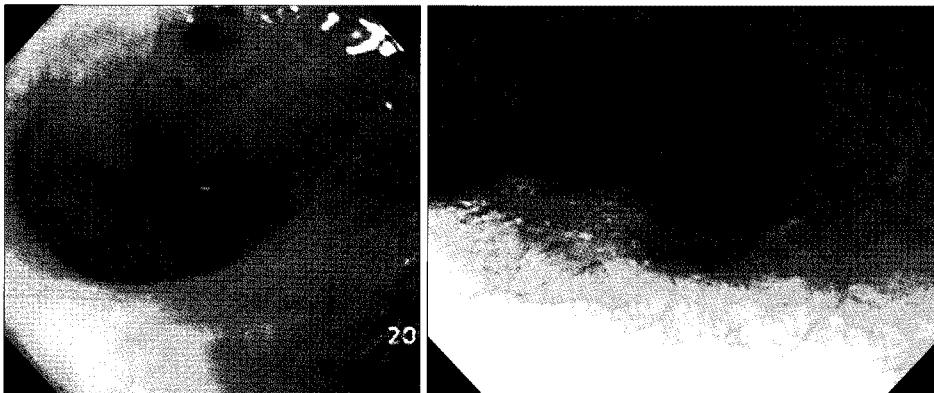


Fig. 4. Postoperative Esophagogastrroduodenoscopy (EGD) after 7 days, EGD shows no extrinsic compressive mass shown in previous study, but slightly blue colored mucosa of the esophagus.

인 지혈에 영향을 미치는 약제(anticoagulants, anti-platelets, thrombolytic agents)등도 보고되고 있다[3]. 이 질환의 병인에 대해서는 아직 모호한 면이 있으나, 하부식도의 점막하층에서 출혈이 발생하여 덮고 있는 점막층은 유지된 채 광범위하게 점막하층을 박리시킴으로써 유발되는 것으로 보고 있다.

구토에 의해서 유발되는 기전은 Mallory-Weiss syndrome, Boerhaave's syndrome과 같은 식도내압상승으로 인한 급성 식도 손상으로 보고 있다. 외상성인 경우는 위내시경을 통한 확장이나 경화요법으로 인한 의인성(iatrogenic) 및 식도이물 등과 같은 음식물에 대한 직접적인 손상이 원인으로 보고 되고 있다[4]. 물고기 뼈 등과 같은 음식물로 인한 경우 직접적인 손상을 받은 식도에서 출혈이 발생한다는 이론이 있으며 또한 음식물로 인한 비정상적인 식도 경련이 일어남으로써 출혈이 발생하여 벽내 혈종이

발생한다는 두 가지 이론이 있다[2].

자발성(spontaneous)이라는 용어는 구토, 외인성, 비정상적인 지혈 등과 같이 원인이 밝혀지지 않은 환자에서 발생하는 것으로 Kelly[5]에 의해 정의하고 있다. 특히 Cullen과 McIntyre[6]이 조사한 바로는 원인을 밝힐 수 없는 경우가 모든 환자의 19%라고 보고하고 있다.

박리성 벽내성 식도혈종은 남성보다 여성에서 두 배 더 많이 발생하며 특히 중년 여성(평균 58세)에서 호발한다. 증상은 (1) 갑작스런 흉통, (2) 연하통 또는 연하곤란(odynophagia or dysphagia), (3) 토혈(hematemesis) 등이 있다. Cullen과 McIntyre[6]은 박리성 벽내성 환자 174명을 조사한 결과 갑작스런 흉통은 84%, 연하곤란은 56%, 토혈은 59%에서 호소하고 있다. 또한 3가지 증상 중 한가지 이상 증상을 호소한 경우가 99%, 두 가지 이상인 경우 79%, 세 가지 모든 증상을 호소하는 경우가 32%라고 보고하고 있다.

박리성 벽내성 식도혈종을 진단함에 있어 감별해야 할 질환으로는 흉통을 호소하는 모든 질환이 포함되며 심전도, 혈액학적인 검사 및 CT를 통해서 심장질환 및 대동맥 질환과 감별 가능하다. 특히 급성 식도 손상을 일으키는 Mallory -Weiss, Boerhaave's syndrome 등과 구분되어져야 한다. Boerhaave's syndrome은 중년의 남성에서 발생하며 특히 심한 구토 후 발생하는 흉통이 특징적이며 일반적인 흉부방사선 촬영에서 이상소견을 보여 박리성 벽내성 식도혈종과 구분된다. Mallory -Weiss syndrome 역시 중년 남성에서 호발하고 위내시경상 식도하부의 점막의 손상으로 박리성 벽내성 식도 혈종과 구별할 수 있다. 또한 급성 식도 손상을 식도 전층을 침범하는 Boerhaave's syndrome과 식도 점막만 침범하는 Mallory -Weiss syndrome 그리고 중간 단계로써 박리성 벽내성 식도 종양으로 구분되어야 한다고 주장하는 저자들도 있다[7].

식도혈종의 진단은 식도 조영술, 흉부 전산화단층촬영, 위내시경 및 내시경 초음파검사(Endoscopic Ultrasonography) 등으로 가능하다. 흉부 전산화단층촬영으로 조영 증가되지 않는 점막하 종괴를 확인할 수 있다. 위내시경으로는 검은색 또는 적자색의 점막하 병변에 의해 식도 내강으로 돌출되어 협착을 보이면 전형적인 벽내성 식도혈종이라 할 수 있다[8]. 식도 조영술에서는 조영제가 벽내 박리된 공간으로 유입되면서 식도 내강이 두 겹으로 관찰되는 소견(double-barrelled esophagus)이 전형적이며, 일부에서는 혈종의 모양에 따라 식도내강의 음영결손으로 관찰되기도 한다. 내시경 초음파검사상 점막하의 군집한 낮은 에코의 병변(homogenous hypoechoic lesion)을 보이기도 하지만 전형적이지는 않다. 감별 진단이 어려울 경우에 흉부 자기공명촬영을 하기도 하며 이때 T1이나 T2 강조영상에서 중등도의 신호강도를 보이는 큰 종괴가 식도 전장에 걸쳐 나타나기도 한다[2].

치료는 금식과 수액 요법으로 1~2주 후면 회복되며, 대부분의 증상은 보통 급격히 소실되었다고 보고된다[6-8]. Cullen과 McIntyre[6]은 박리성 벽내성 식도혈종환자중 17명(10%)에서 수술이 시행되었고 이 중 4명의 환자는 잘못된 진단으로 수술 받았으며 수술 받은 6명의 환자는 후향적으로 분석한 결과 수술이 필요치 않은 것으로 판단되었다. 이 중 7명의 환자는 심한 동맥성 출혈 및 식도파열 그리고 식도 내 질환으로 수술 받은 것으로 조사되었다. 따

라서 박리성 벽내성 환자에서 (1) 지속적인 토혈소견, (2) 식도근총에 심한 혈종소견, (3) 식도 혈종이 식도 열상을 통하여 종격동으로 확산, (4) 식도 천공이 의심될 경우 수술이 필요하다고 보고 있다[2,5-7].

예후는 다른 급성식도손상(Mallory -Weiss, Boerhaave's syndrome)에 비해 매우 양호하며 90% 이상에서 수술이 필요치 않으며 내과적인 치료만으로 증상 소실 및 치료가 종결되었다[6-8].

본 증례와 같이 박리성 벽내성 혈종이 종종 식도 종양으로 오인되어 수술한 예가 보고 되고 있지만 중년여성에서 갑작스런 흉통 및 연하곤란이 있을 경우 한 번쯤 박리성 벽내성 식도혈종을 의심해 보아야 한다고 생각된다. 특히 벽내성 식도혈종이 다른 식도 질환처럼 많이 알려지지 않은 관계로 진단 시 많은 어려움이 있지만 이번 증례를 통하여 급성 식도 손상이 Mallory -Weiss, Boerhaave's syndrome 외에 박리성 벽내성 식도손상이 포함되어 있음을 알리고자 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Marks IJ, Keet AD. *Intraluminal rupture of the esophagus*. Br Med J 1968;3:536-7.
2. Restrepo CS, Lemos DF, Ocacionez D, et al. *Intramural hematoma of the esophagus: a pictorial essay*. Emerg Radiol 2008;15:13-22.
3. Ashman FC, Hill MC, Saba GP, Diaconis JN. *Esophageal hematoma associated with thrombocytopenia*. Gastrointest Radiol 1978;3:115-8.
4. Jones DB, Frost RA, Goodacre RL. *Intramural hematoma of the esophagus-a complication of endoscopic injection sclerotherapy*. Gastrointest Endosc 1986;32:239-40.
5. Kelly DL, Neugebauer MK, Fosberg RG. *Spontaneous intramural esophageal perforation*. J Thorac Cardiovasc Surg 1972;63:504-8.
6. Cullen SN, McIntyre AS. *Dissecting intramural hematoma of the oesophagus*. Eur J Gastroenterol Hepatol 2000;12:1151-62.
7. Jotte RS. *Esophageal apoplexy: case report, review, and comparison with other esophageal disorders*. J Emerg Med 1991;9:437-43.
8. Yoon YH, Kim HK, Kang JS. *Intermuscular hematoma in esophagus: without tearing*. Korean J Thorac Cardiovasc Surg 1999;32:404-7.

=국문 초록=

박리성 벽내성 식도혈종은 Mallory-Weiss syndrome 또는 Boerhaave's syndrome 같이 잘 알려진 급성 식도 손상과 달리 매우 드문 질환이다. 이 질환은 다양한 원인에 의해서 주로 중년 여성에서 발병하지만 아직 정확한 병인론에 대해서는 아직 확립되어 있지 않다. 3대 증상으로는 흉통, 토혈 그리고 연하곤란으로 알려져 있다. 특히 박리성 벽내성 식도 혈종은 수술이 필요한 식도 질환과 구분되어야 하는데 그 이유는 일반적인 내과적인 치료로도 예후가 앙호하기 때문이다. 본 증례는 4일 동안의 흉통 및 연하곤란을 주소로 내원한 36세 여자 환자로 여러 가지 검사상 식도 점막하 종양으로 판단되어 흉부외과에 의뢰된 환자로 수술 후 박리성 벽내성 식도혈종으로 진단되어 보고하는 바이다.

- 중심 단어 : 1. 식도 수술
2. 급성 식도 손상
3. 혈종