



식도 누공으로 자연 배액된 종격동 췌장성 가성낭종

박수호, 박승근, 김상현, 최원규, 심범진, 박희욱, 정찬우, 최재원

부산 메리놀병원 소화기내과

Mediastinal pancreatic pseudocyst naturally drained by esophageal fistula

Soo Ho Park, Seung Keun Park, Sang Hyun Kim, Won Kyu Choi, Beom Jin Shim,
Hee Ug Park, Chan Woo Jung, Jae Won Choi

Division of Gastrology, Department of Internal Medicine, Maryknoll Medical Center, Busan, Korea

Mediastinal pancreatic pseudocyst is a rare complication of acute or chronic pancreatitis. Pleural effusion and pneumonia are two of the most common thoracic complications from pancreatic disease, while pancreaticopleural fistula with massive pleural effusion and extension of pseudocyst into the mediastinum is a rare complication of the thorax from pancreatic disease. To the best of our knowledge, there have been no case reports of mediastinal pancreatic pseudocyst-induced esophageal fistula in Korea to date. Here in, we report a case about 43-year-old man of mediastinal pancreatic pseudocyst-induced esophageal fistula presenting with chest pain radiating toward the back and progressive dysphagia. The diagnosis was confirmed by an esophagogastroduodenoscopy and abdomen computed tomography (CT). The patient was treated immediately using a conservative method; subsequently, within 3 days from treatment initiation, symptoms-chest pain and dysphagia- disappeared. In a follow-up gastroscopy 7 days later and abdomen CT 12 days later, mediastinal pancreatic pseudocyst showed signs of improvement, and esophageal fistula disappeared without any complications.

Keywords: Mediastinal mass; Pancreatic pseudocyst; Pancreatitis; Esophageal fistula

서 론

종격동 가성낭종은 급만성 췌장염의 매우 드문 합병증이다. 일반적으로, 급만성 췌장염의 호흡기 합병증은 흔하진 않지만 췌흉강루(pancreaticopleural fistula), 췌종격동루(pan-

creaticomediastinal fistula), 흉막 삼출액(pleural effusion), 심낭 삼출액(pericardial effusion), 종격동 가성낭종(mediastinal-pseudocyst)이 있다. 그 외에 종격동 농양 및 가성낭종-식도 루 각각 1예가 알려져 있다[1-4]. 종격동 가성낭종은 췌장염 또는 외상으로 인한 췌관 파열, 후 복강으로의 췌액 누출로 주로 발생한다. 누출된 췌액은 주로 식도나 대동맥 열공을 통해 횡격막 위쪽으로 파급된다[4-6]. 췌장염 환자에서 이전에 없었던 비전형적인 흉통, 삼킴 곤란(dysphagia)이 있을 경우에는 치명적인 합병증이 동반될 수 있기 때문에, 발생 가능성을 의심하는 것이 조기 진단에 중요하다. 진단은 영상 검사를 토대로 하며, 치료 방법은 증상의 중증도, 췌관의 해부학적 구조, 가성낭종의 위치, 크기 등에 따라 결정된다[2,5]. 본

Received: June 20, 2016, Revised: August 26, 2016

Accepted: August 29, 2016

Corresponding Author: Seung Keun Park, Division of Gastrology, Department of Internal Medicine, Maryknoll Medical Center, 121 Junggu-ro, Junggu, Busan 48972, Korea

Tel: +82-51-461-2384, Fax: +82-51-441-6950

E-mail: pskgloria@naver.com

Copyright © 2017 Yeungnam University College of 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/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

증례는 종격동 가성낭종으로 인한 식도 누공이 동반된 것으로, 빠른 진단과 보존적 치료로 호전되었다. 현재까지 국내에서 보고된 증례가 없기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자: 남자, 43세

주소: 상복부 동통, 방사성요통(radiating back pain), 삼킴 곤란

현병력: 내원 10일 전부터 상복부 동통, 내원 일주일 전부터 진행되는 상복부 동통, 방사성 요통, 삼킴 곤란으로 내원하였다.

과거력: 6년 전 알코올성 췌장염 진단 후 재발성 췌장염으로 외래에서 단백질 분해효소억제제(protease inhibitor) 및 위장운동촉진제(prokinetic drug)로 보존적인 약물 투여 중이다.

가족력: 특이사항 없었다.

흡연 및 음주력: 25갑년의 흡연력과 10년간 주 3-4회, 회당 소주 2-3병의 음주력이 있었다.

이학적 소견: 혈압 110/60 mmHg, 체온 37.6°C, 호흡수 20 회/분, 맥박 88회/분이었다. 환자는 급성 병색을 보였고, 상복부 불쾌감, 오심, 삼킴 곤란을 호소하였으며, 장음은 감소되어 있었다. 결막은 창백하지 않았고, 공막에 황달은 없었다. 흉부 청진에서 호흡음은 정상이었으며, 심잡음은 청진되지 않았다.

검사실 소견: 말초혈액검사에서 백혈구 15,200/mm³, 혈색소 13.1 g/dL, 헤마토크릿 38.1%, 혈소판 254,000/mm³였다. 혈청생화학검사에서 아스파르테이트아미노전달효소(aspartate aminotransferase) 24 IU/L, 알라닌아미노전달효소(alanine aminotransferase) 10 IU/L, 총단백 8.5 g/dL, 알부민 4.5 g/

dL, 젖산탈수소효소(lactate dehydrogenase) 303 IU/L, 총콜레스테롤 210 mg/dL, 총빌리루빈(total bilirubin) 0.78 mg/dL, 직접빌리루빈(direct bilirubin) 0.53 mg/dL, 혈액요소질소(blood urea nitrogen) 23.4 mg/dL, 크레아티닌 0.7 mg/dL, 아밀라아제(amylase) 132 IU/L, 리파제(lipase) 192 IU/L였다. 혈청 전해질 검사에서 나트륨 134 mEq/L, 칼륨 4.7 mEq/L였고, 그 외 당화혈색소(HbA1c) 9.6%, C-반응단백질(C-reactive protein) 168.8 mg/dL였다.

흉부 및 복부 X선 소견: 흉부 X선에서는 특이 소견 없었고, 복부 X선에서 경한 장마비 소견을 보였다.

심전도 소견: 특이 소견 없었다.

내시경 소견: 삼킴 곤란으로 시행한 위내시경에서 좁아진 식도 하부의 내강에 황색의 염증물질로 덮힌 병변이 있었다. 물 세척후 점막하 종양처럼 생긴 부위를 생검검자로 눌러보았을 때 부드러운 표면을 가졌으며, 병변을 밀어보았을 때 생검검자가 병변 부위 내로 들어가는 쿠션사인(cushion sign) 양상을 보였다(Fig. 1). 한편, 점막하 종양의 상부에는 누공이 관찰되었다.

복부 컴퓨터단층촬영(computed tomography, CT): 췌장염에 의한 합병증을 의심하여 복부 CT를 촬영하였다. 주췌관의 확장 소견과 췌장 주위의 염증, 췌장 미부에 직경 1.6cm의 가성낭종이 관찰되었다. 하부 식도와 흉부 대동맥 사이의 후종격동 내 다수 격막과 내강으로 이루어진 직경 5cm의 가성낭종이 하부 식도를 압박하고 있었다(Fig. 2).

치료 및 경과: 임상양상, 위내시경, 복부 CT 소견으로 재발성 급성췌장염에 의한 후종격동의 가성낭종, 이의 압박으로 인한 하부 식도 누공이 생긴 것으로 추측되었다. 누공이 작고, 종격동 가성낭종의 내부 배액을 추측할 수 있어 금식과 경정맥 영양요법을 유지하면서 ceftriaxone, metronidazole을 사용하였고, somatostatin 유사체인 octreotide acetate를 8시간마다



Fig. 1. Endoscopy shows narrowing of the distal esophagus by compression with extrinsic lesion (A, B). After washing, the forceps easily pass through the central ulcer (C).

50 μ g으로 총 11일간 투약하였다. 입원 2일째, 증상의 급격한 완화와 아밀라아제/리파제의 감소가 있었으며, 입원 4일째 촬영한 복부 CT에서 후종격동의 가성낭종이 2.5 cm로 감소되어, 누공을 통하여 식도로 내부 배액이 되고 있다고 추측하였

다(Fig. 3). 입원 7일째 시행한 위내시경에서 하부 식도의 내강은 넓어져 있었고, 누공이 있던 부위는 점막하 종양처럼 돌출되어 있으나 생검검자로 눌러 보았을 때 부드러운 표면을 보이고 고름이 나오던 누공이 있던 부분도 사라졌다(Fig. 4).

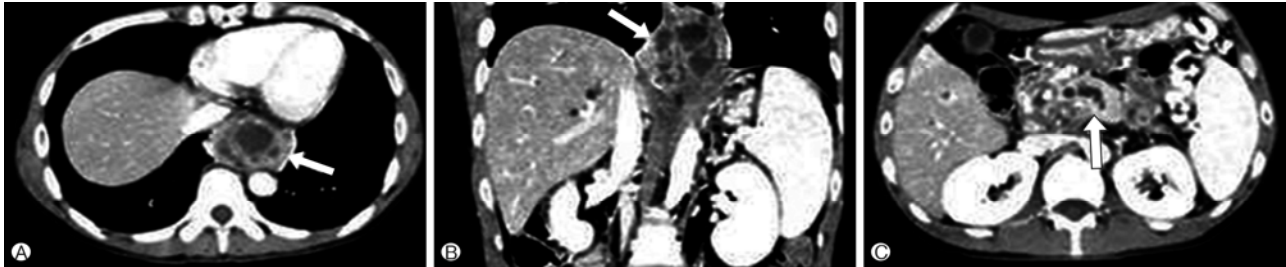


Fig. 2. Axial and coronal images of the contrast-enhanced abdominal computed tomography shows a multiseptated cavitory cystic lesion, with a size of approximately 5 cm (arrow), on the posterior mediastinum compressing the distal esophagus (A, B). Dilatation of the main pancreatic duct and fluid collection around the distal pancreas (arrow) is observed (C).

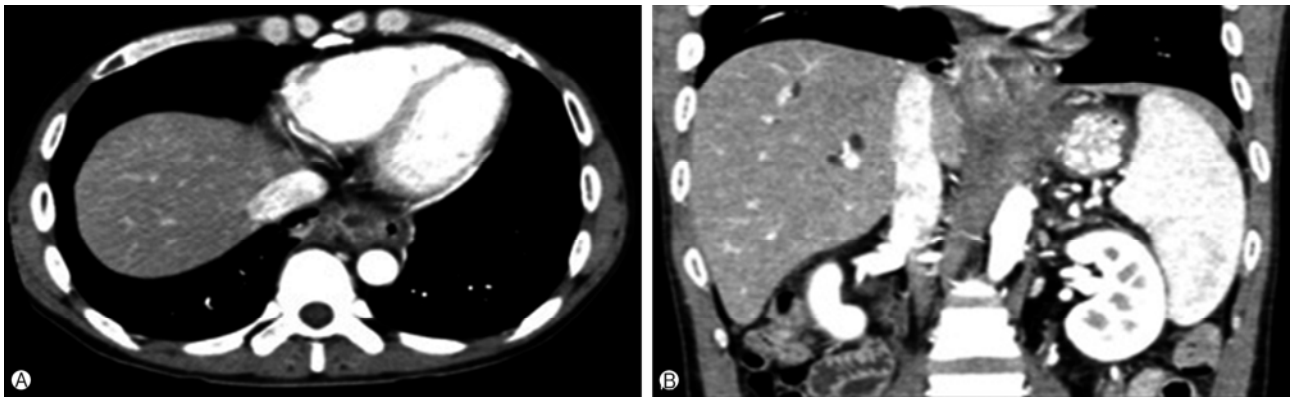


Fig. 3. Axial and coronal images of contrast-enhanced abdominal computed tomography after 4 days from admission show a markedly decreased size of mediastinal pancreatic pseudocyst (A, B).

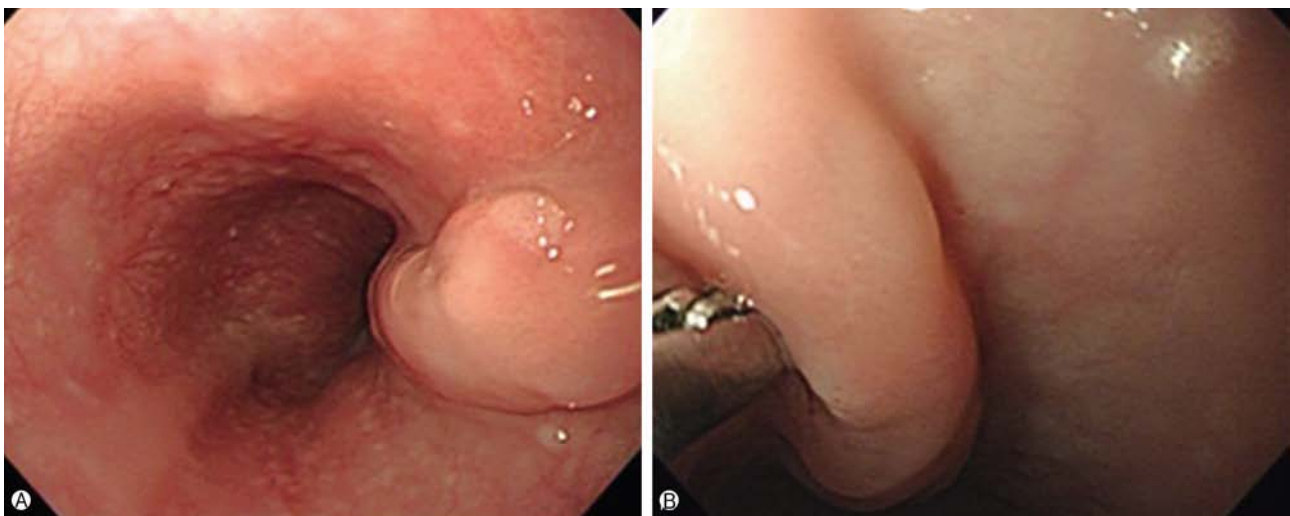


Fig. 4. Endoscopy performed after 7 days from admission shows normal esophageal lumen (A) and submucosal tumor with a soft surface without opening (B).

입원 12일째 촬영한 복부 CT에서 후종격동 내 가성낭종 및 췌장 가성낭종이 호전된 소견을 보여(Fig. 5), 유동 식이를 시작하였다. 환자는 증상 및 검사 결과가 호전되어 입원 15일째 퇴원 후 현재 재발 없이 외래 추적관찰 중이다(Table 1).

고 찰

종격동 가성낭종은 급만성 췌장염의 매우 드문 호흡기 합병증으로, 그 외 췌홍강루, 췌종격동루, 흉막 삼출액, 심낭 삼출액이 있다. 종격동 가성낭종은 전세계적으로 50여 예가 보고되었으며, 종격동 농양 1예, 종격동 가성낭종 식도루 1예가 알려져 있다[1-4]. 종격동 가성낭종은 급만성 췌장염, 외상성 췌장염으로 인해 췌액이 누출되어 괴저성 조직 파편, 수액 및 췌액 등이 모여 낭종을 형성하는 질환이다. 급성 췌장염의 7-25%, 만성 췌장염의 20-25%에서 발생하는 것으로 알려져 있는데, 이중 70-80%는 알코올성 췌장염과 관련이 있다[4]. 누출된 췌액은 주로 식도나 대동맥 열공을 통해 횡

격막 위쪽으로 파급되거나, 드물게 morgagni 구멍이나 횡격막을 직접 침습하기도 한다. 따라서 저항이 가장 적은 후종격동에 많이 위치하게 된다[4,6]. 종격동 가성낭종의 증상은 주로 종격동 구조물의 침범, 압박, 파열에 의해 생긴다. 삼킴 곤란, 삼킴 시 통증, 비전형적인 흉통을 호소할 수 있으며, 드물게 심낭압전, 울혈성 심부전, 쇼크, 기도폐쇄, 경부부종, 대량객혈 등 심각한 합병증과 연관될 수 있다[7,8]. 췌장염 환자에서 이전에 없었던 비전형적인 흉통, 삼킴 곤란이 있을 경우에는 앞서와 같은 치명적인 합병증이 동반될 수 있기 때문에, 발생 가능성을 의심하는 것이 조기 진단에 중요하다. 진단은 영상 검사를 토대로 하며, CT나 자기공명영상(magnetic resonance imaging)을 통해 종격동 가성낭종의 위치, 주변 구조물과의 관계, 췌장과의 누공 형성 여부 등을 알 수 있다. 그 외 내시경적 초음파 검사(endoscopic ultrasonography) 유도 하 낭종을 흡인하여 증가된 아밀라아제 수치로도 진단할 수 있다[9]. 본 증례는 임상 증상과 CT, 위내시경을 통하여 종격동 췌장성 가성낭종 및 하부 식도압박으로 인한 누공을 확인하였다. 환자의

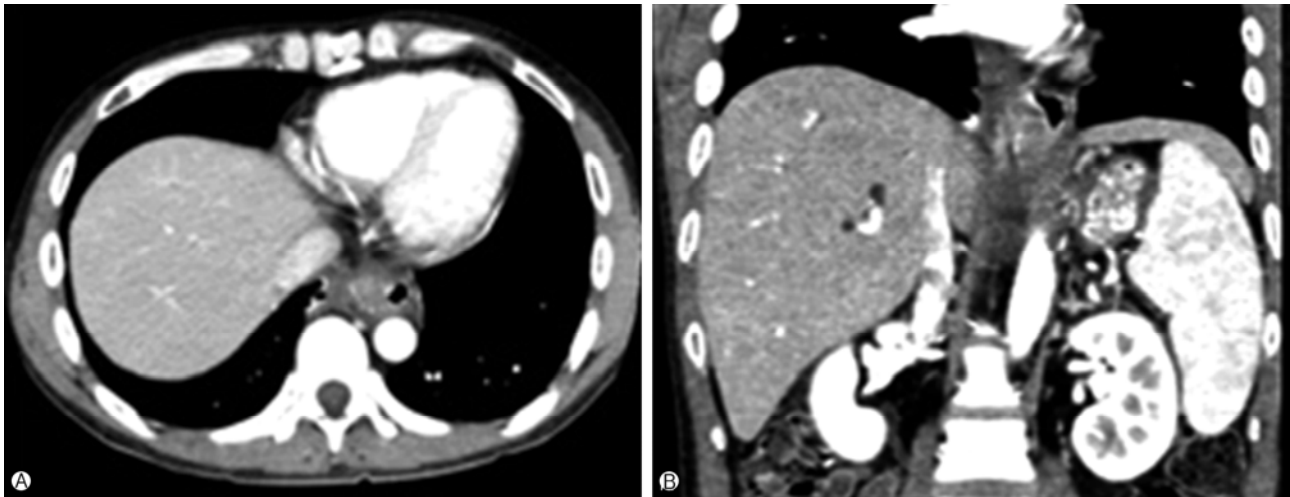


Fig. 5. Axial and coronal images of contrast-enhanced abdominal computed tomography after 12 days from admission show a resolving process of mediastinal and pancreatic pseudocyst (A, B).

Table 1. Follow up flow sheet of symptoms, gastroscopy, abdominal CT, and laboratory findings

	AD	+2 D	+4 D	+7 D	+12 D	+15 D
Abdominal pain and dysphagia	Improved					
Gastroscopy	Done			Done		
Abdominal CT	Done		Done		Done	
WBC ($\times 10^3/\text{mm}^3$)	15.2	4.5	5.6	4.4	4.8	4.8
CRP (mg/L)	158.9	131.5	35.2	10.6	4.0	1.1
Amylase (IU/L)	135	90	139	75	70	75
Lipase (IU/L)	192	73	128	49	39	39

CT, computed tomography; AD, admission; D, day; WBC, white blood cell; CRP, C-reactive protein.

임상 증상과 종격동 가성낭종이 급격히 좋아진 것으로 보아 식도 누공으로 인한 내부 배액이 이루어진 것이라 추측된다. 종격동 가성낭종의 치료 방법은 확립된 것은 없으나 증상의 중증도, 췌관의 해부학적 구조, 가성낭종의 위치, 크기, 합병증의 유무 등에 따라 결정된다[2,5,7,10]. 본 증례는 종격동 가성낭종이 진행, 압박으로 인한 식도 누공이 동반된 것으로, 재발성 급성 췌장염에 병발된 종격동 가성낭종의 크기는 5 cm 미만이었다. 동반된 식도 누공의 크기가 작고, 누공으로 인한 합병증은 관찰되지 않았다. 환자의 활력징후는 안정적이었으며, 하부 식도로의 자연배액 및 보존적 치료에 증상이 호전되었다. 일반적으로 식도 누공의 크기가 미세하거나 거의 막힌 경우, 환자의 증세가 경미하며 염증 소견이 미약한 경우, 종격동 농양의자연 배출이 식도를 통해 잘 이루어지고 있는 경우 보존적 치료를 하게 된다[11]. 본 증례에서는 보존적 치료로 금식, 경정맥 영양요법, 광범위 항생제를 사용하였고, somatostatin 유사체인 octreotide acetate를 8시간마다 50 µg으로 총 11일간 투약하였다. 이후 시행한 혈액검사, 복부 CT, 위내시경 검사에서 호전소견 보여 현재 외래에서 재발 없이 추적 관찰 중이다. 또한 octreotide 사용만으로 종격동 가성낭종이 완전히 호전된 증례도 국내 보고에서 2예가 있다[4,12]. 보존적 치료 이외에 다양한 치료 방법들이 보고되고 있다. 내시경적 내부 배액술로, 역행췌담관조영술(endoscopic retrograde cholangiopancreatography)을 통한 배액술, 초음파유도하 배액술이 있다. 특히 역행췌담관조영술 중 유두(papillary)를 경유한 도관 삽입은 종격동 가성낭종과 췌관 사이에 연결이 있을 때 효과적이다. 보고된 합병증으로는 시술 후 출혈, 감염, 췌장염 및 스텐트의 이동, 협착, 후복막 천공과 십이지장의 미란이 있고, 재발률은 5% 미만이다. CT 유도 하 외부 배액술은 주로 카테터를 이용하며, 보다 안전하고 접근성이 용이하다. 크기가 큰 종격동 가성낭종에서 성공적으로 배액될 수 있으나, 가성낭종의 위치가 큰 혈관 주위에 있는 경우, 접근이 어려운 경우도 있다. 보고된 합병증으로는 출혈, 감염, 누공 형성이 있고, 재발률은 20% 이하이다[2,7,13]. 이런 시술들은 수술적 치료법에 비해 덜 침습적이기 때문에 보통 종격동 가성낭종의 첫번째 치료로 선호된다. 수술적 치료법으로는 외부/내부 배액술이 있으며, 과거에는 가장 흔한 치료법이었지만 최근에는 혈액학적으로 불안정하거나 췌장 가성낭종의 파열, 출혈, 괴사 등이 있을 경우 시행된다. 수술로 인한 사망률은 1% 내외, 합병증으로 출혈과 감염이 20-25%, 재발률은 약 5%로 보고된다[14,15].

종격동 췌장성 가성낭종은 매우 드문 췌장염의 합병증으로,

식도 누공이 같이 보고된 증례는 국내에 없었다. 재발성 췌장염 환자가 비전형적인 흉통 및 삼킴 곤란을 호소하였고, 복부 CT와 위내시경으로 빠른 진단을 하였다. 전 세계적으로 50예가 보고되어 현재까지 명확한 진료 지침은 없으나 임상 증상, 가성낭종의 위치 및 크기, 식도 누공의 크기, 방사선 및 위내시경 소견을 고려하여, 식도로의 내부 배액을 추측할 수 있었고, 보존적 치료를 유지하며 성공적으로 치료되었기에 증례를 보고하는 바이다.

CONFLICT OF INTEREST

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

ORCID

Soo Ho Park, <https://orcid.org/0000-0002-6785-6669>

Seung Keun Park, <https://orcid.org/0000-0001-6748-5717>

REFERENCES

- Roucaud N, Lainé L, Marceau C, Montésino L, Paulet R, Coudray JM, et al. Mediastinal abscess with pericarditis: an unusual complication of severe pancreatitis. *Am Surg* 2010; 76:1315-6.
- Metaxa D, Balakrishnan A, Upponi S, Huguet EL, Praseedom RK. Surgical intervention for mediastinal pancreatic pseudocysts. A case series and review of the literature. *JOP* 2015;16: 74-7.
- Landreneau RJ, Johnson JA, Keenan RJ, Thompson WM, Megison S, Ferson PF. "Spontaneous" mediastinal pancreatic pseudocyst fistulization to the esophagus. *Ann Thorac Surg* 1994;57:208-10.
- Kwon NY, Kim DH, Hong SK, Choi EK, Park JS, Jee YK, et al. A case of mediastinal pancreatic pseudocyst. *Tuberc Respir Dis* 2001;51:482-7. Korean.
- Belágyi T, Issekutz A, Paukovics A, Kecskés G, Oláh A. Successful treatment of mediastinal pancreatic pseudocyst by pancreatic head resection. *JOP* 2008;9:346-9.
- Khan MS, Shahbaz N, Zia HA, Hamza M, Iqbal H, Awab A. Pancreaticopericardial fistula: a case report and literature review. *Case Rep Crit Care* 2016;2016:7169341.
- Ajmera AV, Judge TA. Mediastinal extension of pancreatic pseudocyst—a case with review of topic and management guidelines. *Am J Ther* 2012;19:e152-6.
- Nasa M, Choudhary M, Patil G, Puri R. Mediastinal pancreatic pseudocyst. *J Dig Endosc* 2016;7:20-3.
- Geier A, Lammert F, Gartung C, Nguyen HN, Wildberger

- JE, Matern S. Magnetic resonance imaging and magnetic resonance cholangiopancreatography for diagnosis and pre-interventional evaluation of a fluid thoracic mass. *Eur J Gastroenterol Hepatol* 2003;15:429-31.
10. Kim HJ, Kim MH, Park DH, Kwon HM, Park SJ, Choi EJ, et al. Endoscopic ultrasound-guided transesophageal drainage of a mediastinal pancreatic pseudocyst. *Korean J Pancreas Biliary Tract* 2014;19:137-41. Korean.
 11. Lim YS, Kim AN, Kim SY, Lim SH, Kim NY, Lee KH, et al. A case of mediastinal abscess following esophageal perforation. *Korean J Gastrointest Endosc* 1992;12:9-12. Korean.
 12. Park SH, Kim SJ, Kim EJ, Lee MH, Kim HS, Chung IK, et al. A case of mediastinal pancreatic pseudocyst treated with octreotide. *Korean J Gastroenterol* 1999;34:417-21. Korean.
 13. Bardia A, Stoikes N, Wilkinson NW. Mediastinal pancreatic pseudocyst with acute airway obstruction. *J Gastrointest Surg* 2006;10:146-50.
 14. Lillemoe KD, Jarnagin WR. *Hepatobiliary and pancreatic surgery*. Philadelphia, PA: Lippincott Williams & Wilkins; 2013.
 15. Panackel C, Korah AT, Krishnadas D, Vinayakumar KR. Pancreatic pseudocyst presenting as dysphagia: a case report. *Saudi J Gastroenterol* 2008;14:28-30.