

## 간낭종 경화 치료 후 발생한 기관지담관루에 의한 담즙성 객담 1예

연세대학교 의과대학 <sup>1</sup>내과학교실, <sup>2</sup>폐질환연구소

이상훈<sup>1</sup>, 이경중<sup>1</sup>, 김송이<sup>1</sup>, 이상국<sup>1</sup>, 정규식<sup>1</sup>, 박병훈<sup>1</sup>, 정지예<sup>1</sup>, 손지영<sup>1</sup>, 윤여운<sup>1</sup>, 강영애<sup>1,2</sup>, 박무석<sup>1,2</sup>, 김영삼<sup>1,2</sup>, 장준<sup>1,2</sup>, 김세규<sup>1,2</sup>, 문진욱<sup>1,2</sup>

## Bilioptysis Caused by Bronchobiliary Fistula Secondary to Sclerosing Therapy of Liver Cyst

Sang Hoon Lee, M.D.<sup>1</sup>, Kyung Jong Lee, M.D.<sup>1</sup>, Song Yee Kim, M.D.<sup>1</sup>, Sang Kook Lee, M.D.<sup>1</sup>, Kyu Sik Jung, M.D.<sup>1</sup>, Byung Hoon Park, M.D.<sup>1</sup>, Ji Ye Jung, M.D.<sup>1</sup>, Ji Young Son, M.D.<sup>1</sup>, Yoe Wun Yoon, M.D.<sup>1</sup>, Young Ae Kang, M.D.<sup>1,2</sup>, Moo Suk Park, M.D.<sup>1,2</sup>, Young Sam Kim, M.D.<sup>1,2</sup>, Joon Chang, M.D.<sup>1,2</sup>, Se Kyu Kim, M.D.<sup>1,2</sup>, Jin Wook Moon, M.D.<sup>1,2</sup>

<sup>1</sup>Department of Internal Medicine, <sup>2</sup>The Institute of Chest Diseases, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Bronchobiliary fistula is a rare disorder consisting of an abnormal communication between the bronchial tree and the biliary duct. In Western countries, trauma, postoperative biliary stenosis, and biliary lithiasis are the predominant causative factors of bronchobiliary fistula. Bilioptysis (bile stained sputum) is a pathognomic finding for bronchobiliary fistula. To date, there are just a few reported cases of bronchobiliary fistula after sclerosis of a liver cyst. We describe the case of a 74-year-old woman who developed bronchobiliary fistula after sclerosing therapy of a liver cyst. The diagnosis was confirmed by the presence of bilioptysis and the chest and dynamic liver CT findings. The patient was successfully treated with antibiotics and percutaneous transhepatic catheter drainage.

**Key Words:** Cyst, Hepatic; Bronchobiliary fistula; Bilioptysis; Sclerosing injections

### 서 론

기관지담관루(bronchobiliary fistula)는 담도계에서 매우 드문 질환 중의 하나로 기관지와 담관계 사이에 비정상적인 연결이 형성된 것을 말한다. 이는 1850년 Peacock 등이 Echinococcus에 의한 간질환에서 발견된 기관지담관루를 처음 기술한 이후 여러 가지가 보고 되고 있으며, 이로 인한 사망률을 줄이기 위해 발견 즉시 적극적인 치료가 필요한 질병이다.

이를 일으키는 주요 원인에는 선천적 기형 외에 간담도 부위의 외상, 수술 후 간담도계의 협착, 담석, 간낭종, 간암에 대한 고주파 열치료(radiofrequency ablation) 후, 기생충성 간질환, 횡격막 직하방의 간농양 등이 있다<sup>1,2</sup>.

이러한 기관지담관루에 의한 증상으로는 발열, 기침, 흉통, 호흡곤란 등을 보일 수 있으며, 담즙성 객담(bilioptysis)이 관찰될 수 있는데, 이 경우 진단에 있어 특징적이다<sup>3</sup>. 또한 기관지 담관루 진단에 있어서 내시경역행체담관조영술(endoscopic retrograde cholangiopancreatography, ERCP) 또는 경피간적 담도내시경술(percutaneous transhepatic cholangioscopy, PTC)을 사용할 수 있으며, 영상학적인 방법으로는 전산화 단층촬영 및 자기공명영상을 사용할 수 있다. 또, 간담도 스캔을 통한 담도 누출이나 누공 확인을 통해 확진할 수도 있다. 아직 치료에 있어서는 통일된 원칙은 없는 상태이나 내시경적인 시술을 통한 비수술적인 치료와 폐엽절제술과 같은 수술적 치료와

Address for correspondence: **Jin Wook Moon, M.D.**  
Department of Internal Medicine, Yonsei University College of Medicine, 250, Seongsan-no, Sudaemoon-gu, Seoul 120-752, Korea  
Phone: 82-2-2228-1996, Fax: 82-2-393-6884  
E-mail: jwmoon@yuhs.ac

Received: Mar. 10, 2010

Accepted: Apr. 27, 2010

있다<sup>4,5</sup>.

본 증례에서 저자들은 간낭종에 대해 배액 및 경화술을 시행받은 후 담즙성 객담을 동반한 기관지담관루가 발생한 환자에서, 이를 경피간적 카테터 삽입 및 배액술을 통해 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증례

**환자:** 74세, 여자

**주소:** 담즙 색깔의 가래, 기침, 열

**과거력 및 가족력:** 20년 전 간낭종 진단 후 인근 병원에



Figure 1. This picture shows bile-stained sputum.



Figure 2. The chest X-ray shows consolidation on the right lower lung field.

서 추적 관찰한 것 외 다른 특이 과거병력은 없었으며, 가족력도 없었다.

**흡연력 및 음주력:** 흡연력과 음주력 없었다.

**현병력:** 7개월 전 보름간의 소화 불량과 설사를 주소로 촬영한 복부 전산화 단층촬영상 16×15 cm 크기의 간낭종이 발견되어, 두 차례에 걸쳐 카테터 삽입 및 배액술과 경화술을 시행받았으며, 이후 소화기 내과에서 추적 관찰하던 중 3일 전부터 담즙 색깔의 가래, 기침 및 열이 발생하여 응급실로 내원하였다(Figure 1).

**진찰소견:** 내원 당시 급성 병색이었으며, 신체 검사상 혈압 104/67 mmHg, 맥박 82회/분, 호흡수 20회/분, 체온은 38.9°C였다. 흉부 청진상 우측 하부 폐야에서 호흡음의 감소와 수포음이 청진되었다. 복부는 약간 팽대하였으며, 촉진상 간비대 소견을 보였고, 복부에 압통과 반발통은 없었다.

**초기 검사실 소견:** 내원 당시 시행한 말초 혈액 검사에서 백혈구 20,890/mm<sup>3</sup> (중성구 90.2%, 림프구 5.4%, 호산구 0.4%), 혈색소 10.4 g/dL, 헤마토크리트 31.4%, 혈소판 288,000/mm<sup>3</sup>이었으며, 혈청 생화학 검사 결과에서 총단백 6.6 g/dL, 알부민 3.4 g/dL, alkaline phosphatase 96 IU/L, AST/ALT 20/24 IU/L, 총빌리루빈 1.4 mg/dL, 콜레스테롤 123 mg/dL, BUN 17.1 mg/dL, Creatine 0.66 mg/dL이었다. 혈청 전해질 검사에서 Na 132 mEq/L, K 3.8 mEq/L, Cl 100 mEq/L이었고, 혈액 응고 검사에서 프로트롬빈 시간은 13.4초(INR 1.13), 활성 부분 프로트롬빈 시간은 25.1초로 정상 범위이었다.

**방사선 검사 소견:** 내원 당시의 흉부 단순 촬영에서 우

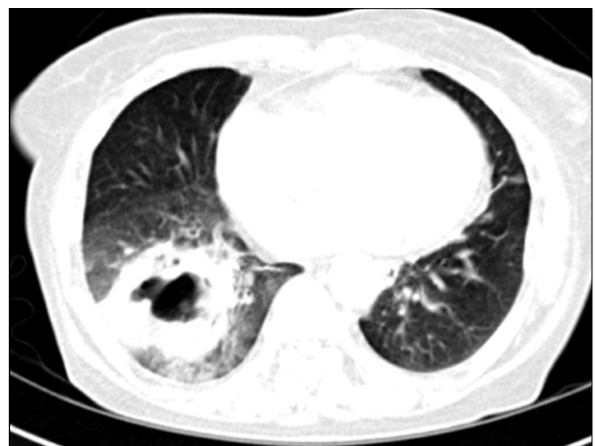


Figure 3. The initial chest CT reveals secondary abscess of lung due to liver cyst infection and diaphragm rupture.

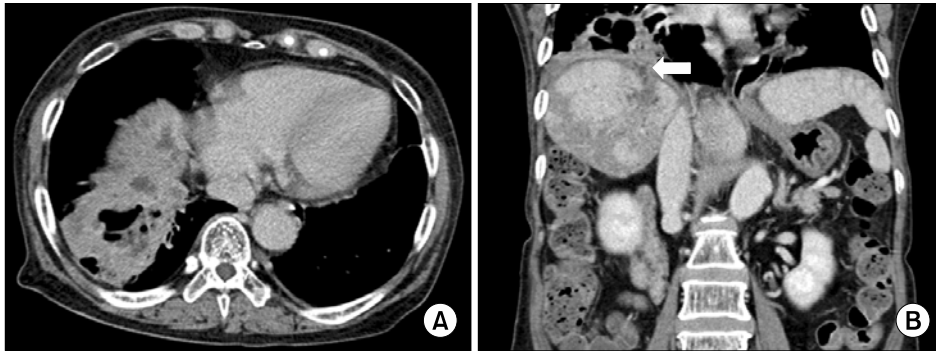


Figure 4. (A, B) The liver CT shows extrahepatic biloma and abscess formation with pleural fistula (arrow).

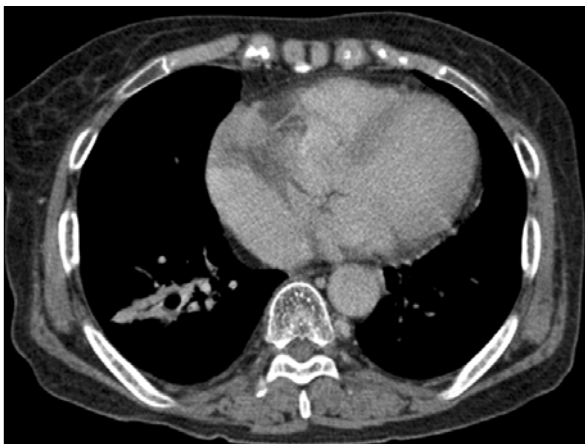


Figure 5. The follow-up chest CT reveals an improvement of the previous lung abscess and extrahepatic biloma.

측 하부 폐야에 경화(consolidation) 소견과 우측 횡격막 상승 소견을 보였다(Figure 2). 흉부 전산화 단층촬영에서는 우측 하부 폐야에서 경화 소견 외 약 5 cm 크기의 공기 액체층(air-fluid level)을 보이는 폐농양과 간 낭종과의 연결이 보였으며, 횡격막 결손 소견이 관찰되었다(Figure 3). 간 전산화 단층촬영에서는 본래 있던 담석 외 새로이 흉막루를 통한 간즙종(biloma)과 폐농양과의 연결소견이 보였었다(Figure 4).

**임상 경과 및 추가 검사:** 환자는 7개월 전 소화기 내과에서 크기 16×15 cm 간낭종에 대해 두 차례의 카테터 삽입, 배액술 및 경화술을 시행받은 후 추적 관찰 하던 분으로, 3일 간의 폐렴 증상 및 약 200~300 mL 정도의 담즙성 객담으로 입원하였다. 당시 시행한 객담 분석상 총 빌리루빈 1.2 mg/dL이었고, 전산화 단층촬영 검사상 간농양과 기관지담관루에 의한 폐렴 소견 보여 moxi-

floxacin, clindamycin의 항생제를 사용하고 동시에, 간농양에 대한 카테터 삽입 및 배액술을 시행하였다. 간 농양 배액 검체에 대해 시행한 균 동정 검사에서 *Klebsiella pneumoniae*가 동정되었으며, 치료 한달 후 시행한 간 컴퓨터 사진상 담즙종과 폐의 농양 크기는 감소하였으며(Figure 5), 기침과 담즙성 객담의 증상도 호전되어 퇴원하였고, 현재 정기적으로 외래에서 추적 관찰 중이다.

### 고 찰

기관지담관루는 손상된 횡격막을 통해 기관지와 담관계 사이에 비정상적인 연결이 형성되어 발생하며, 담즙성 객담을 진단적 특징(pathognomonic hallmark)으로 하는 담도계에 있어 매우 드문 질환 중에 하나이다. 기관지담관루는 1850년 Peacock 등이 간 포충증(hepatic echinococcosis) 환자에서 생긴 것을 처음 문헌 보고한 이후 여러 발생 원인이 보고되고 있다. 선천적인 원인 외에도 간 외상, 간담도계의 협착, 담석, 간암, 간낭종, 기생충에 의한 감염, 취장염이나 간담도의 염증 등에 의한 기관지담관루가 보고되고 있으며, 수술이나 경도관 동맥색전술(transcatheter arterial embolization), 고주파 열치료와 같은 이 부위에 대한 시술 후 생긴 예들도 보고되고 있다. 대부분의 경우에 있어서는 횡격막 직하방의 농양을 동반하고 있다<sup>6</sup>.

기관지담관루는 12.2%의 높은 사망률을 보인다<sup>7</sup>. 따라서 진단이 지연될 경우 담즙에 의해 심각한 폐손상과 괴사성 폐렴(necrotizing pneumonia) 등과 같은 합병증을 야기할 수 있어, 조기 진단과 이에 대한 빠른 치료가 필요하다.

본 증례와 같이 기관지담관루의 증상은 기침, 담즙성

객담, 호흡곤란, 흉통, 발열, 어깨나 견갑골 부위로의 방사통 등을 보일 수 있으며<sup>8</sup>, 담즙에 의한 급성 세기관지염의 증상을 보일 수도 있다. 또한 담관염 등의 복부 감염으로 인할 때에는 우상복부 통증이나 황달을 동반할 수 있다.

발생 원인을 보면, 외상이나 수술 후에 직접적으로 생길 수도 있으며, 포충낭종(hydatid cyst)에 의해 횡격막과 흉곽 안(pleural cavity)의 손상으로 기관지 담관루가 발생할 수 있다. 하지만 보고한 증례와 같이 간농양이나 담즙종에 의하여 담관염(cholangitis)과 같은 국소적인 염증반응이 진행되고, 그로 인하여 담관의 협착과 담관의 압력이 높아져 결과적으로 횡격막 손상이 오고, 폐와 흉막 쪽으로 파열되어 나타날 수도 있다. 이 경우에는 간농양이나 담즙종의 위치와 크기가 발병에 영향을 미친다<sup>9</sup>.

기관지 담관루의 대부분의 경우에 있어서 확진과 해부학적 구조를 알기 위하여 영상 검사들이 필수적이다. 흉부 단순 촬영에서는 우측 폐하부의 경화 소견과 함께 우측 횡격막 상승, 우측의 흉수, 하부 폐하에 무기폐 소견, 폐농양 등을 보일 수 있으며, 진단에 있어 가장 일반적인 흉부 & 복부 전산화 단층촬영에서는 간농양과 담관 내 공기 음영 소견을 보일 수 있으나 기관지담관루 자체는 보이지 않을 수 있다<sup>10</sup>. 복부 초음파는 담도 내에 농양 발견에 유용하며, 배액술 시행 시 이용될 수 있다. 자기 공명 체담도조영술(magnetic resonance cholangiopancreatography, MRCP)도 진단에 있어 도움이 된다.

위치확인을 위해서는 ERCP를 이용할 수 있으며, 근위부 협착이 원인이거나 내시경적 역행성 담췌관 조영술이 불가능할 때에는 PTC를 시도할 수 있다. 그 외 비침습적인 방법으로 담도 동위원소 촬영인 99m-Tc-HIDA 및 99m-Tc-DISIDA scan 등을 이용하여 확인할 수 있으나 손상의 범위를 파악하거나 누공의 위치 파악에는 한계가 있다<sup>11,12</sup>. 기관지 내시경(fibroptic bronchoscopy)은 기관지 담관루의 위치와 원인을 알기 위한 검체(sputum sample)를 얻는 데 도움이 되나 일반적으로 담즙성 객담만 확인할 뿐으로, 환자의 과거력상 기관지 내부의 병인이 의심되지 않는다면 일반적으로 시행하지는 않는다.

기관지담관루의 치료에 있어서는 아직 정해진 표준 치료는 없으나 기존 질환의 치료와 담관 협착을 제거하여 담즙이 배액이 되도록 하는 것이 중요하다. 본래 전통적으로 신속하게 농양을 배액하고, 기관지 담관루와 관련된 간과 폐의 조직을 제거하는 수술적 치료를 많이 시행하였다. 이러한 수술적 치료는 보존적 치료 후에도 기관지 담관루가 반복되는 환자와 조절되지 않는 폐나 흉강 내 염

증, 치료 후 합병증이 생긴 환자에서 심각한 폐손상을 막기 위해 시행한다<sup>13</sup>. 하지만, 수술적 치료 자체가 어려운 환자들이 있으며, 수술 후 합병증과 사망률이 높고, 재수술이 많아 내시경적 역행성 담췌관조영술 또는 경피경간 담도조영술을 통한 담도 배액술, 발룬 확장술(Ballon dilatation), 괄약근 절개술(sphincterotomy), 금속성 스텐트 삽입(stent insertion) 등의 비수술적인 방법들이 이용되고 있다<sup>14</sup>.

내시경적인 방법은 경우에 따라 담관 내의 압력을 줄여 줌으로써 누공을 막아주는 효과가 있다. 하지만 이러한 내시경적인 방법도 해부학적으로 상부위장관 변이를 가진 환자나 담석의 크기가 2 cm를 넘는 경우에는 제한된다. 또 병인에 따라서는 말기 암에 의한 환자와 같이 기대 수명이 짧은 경우 경감을 위해 비침습적인 내시경적 시술이 권고되며, 담석이나 포충낭종과 같은 양성 질환에 의한 기관지 담관루일 경우 충분한 배액이 되지 않는다면, 수술과 같은 적극적인 치료가 권고된다<sup>15</sup>.

지속되는 기관지 담관루에 있어서는 개흉술(thoracotomy)의 적응증이 되며, 지연될 경우 폐의 손상과 폐절제가 필요하게 된다. 개흉술에 있어서 횡격막 하부와 간까지 관찰을 해야 하며, 기관지 담관루는 완전히 절제되어야 하며, 담즙이 비정상적으로 배액되지 않는 것을 확인하여야 한다.

본 증례에서는 기관지 담관루와 함께 동반된 간농양과 담즙종에 대해서 내시경적 시술 없이 항생제와 함께 경피경간 카테터 삽입술과 배액술을 통해 담관과 기관지 분지 사이의 압력을 줄이고, 간의 염증을 덜어주는 보존적 치료로 호전되었다.

결론적으로, 저자들은 이번 증례를 통하여 횡격막 직후에 위치한 간농양에 대해 경화술을 시행 시 합병증으로 기관지 담관루가 생길 수 있음에 대해 주의를 기울일 것과 간담도 질환을 가지고 있는 환자에서 폐렴 증상과 함께 담즙성 객담을 보일 때에는 반드시 기관지 담관루를 의심해야 함을 강조하는 바이다.

## 참 고 문 헌

1. Yoon DH, Shim JH, Lee WJ, Kim PN, Shin JH, Kim KM. Percutaneous management of a bronchobiliary fistula after radiofrequency ablation in a patient with hepatocellular carcinoma. Korean J Radiol 2009;10:411-5.
2. Warren KW, Christophi C, Armendariz R, Basu S. Surgical treatment of bronchobiliary fistulas. Surg Gynecol

- Obstet 1983;157:351-6.
3. Navsaria PH, Adams S, Nicol AJ. Traumatic thoracobiliary fistulae: a case report with a review of the current management options. *Injury* 2002;33:639-43.
  4. Khandelwal M, Inverso N, Conter R, Campbell D. Endoscopic management of a bronchobiliary fistula. *J Clin Gastroenterol* 1996;23:125-7.
  5. Tran T, Hampel H, Qureshi WA, Shaib Y. Successful endoscopic management of bronchobiliary fistula due to radiofrequency ablation. *Dig Dis Sci* 2007;52:3178-80.
  6. Al-Mezem SS, Al-Jahdali HH. Chronic cough due to bronchobiliary fistula. *Respiration* 1999;66:473-6.
  7. Moumen M, el Fares F. Bilio-bronchial fistula of hydatid origin. Apropos of 8 cases. *J Chir (Paris)* 1991;128:188-92.
  8. Lee MT, Hsi SC, Hu P, Liu KY. Biliopleural fistula: a rare complication of percutaneous transhepatic gallbladder drainage. *World J Gastroenterol* 2007;13:3268-70.
  9. Chua HK, Allen MS, Deschamps C, Miller DL, Pairolero PC. Bronchobiliary fistula: principles of management. *Ann Thorac Surg* 2000;70:1392-4.
  10. Deshmukh H, Prasad S, Patankar T, Patel V. Percutaneous management of a broncho-biliary fistula complicating ruptured amebic liver abscess. *Am J Gastroenterol* 1999;94:289-90.
  11. Andalkar L, Trow TK, Motroni B, Katz DS. Bronchobiliary fistula as a complication of liver metastases: diagnosis by HIDA scan. *Clin Nucl Med* 2004;29:289-91.
  12. Velchik MG, Roth GM, Wegener W, Alavi A. Bronchobiliary fistula detected by cholescintigraphy. *J Nucl Med* 1991;32:136-8.
  13. Adams HD. Pleurobiliary and bronchobiliary fistulas. *J Thorac Surg* 1955;30:255-62.
  14. Schwartz ML, Coyle MJ, Aldrete JS, Keller FS. Bronchobiliary fistula: complete percutaneous treatment with biliary drainage and stricture dilation. *Radiology* 1988;168:751-2.
  15. Gugenheim J, Ciardullo M, Traynor O, Bismuth H. Bronchobiliary fistulas in adults. *Ann Surg* 1988;207:90-4.