이동방지 식도 스텐트를 이용한 상부 식도기관지누공의 치료 1예

윤소윤, 심기남, 나선경, 류재인, 윤혜원, 김성은, 정혜경, 정성애

이화여자대학교 의학전문대학원 내과학교실

Treatment of Proximal Esophagobronchial Fistula with an Anti-migration Esophageal Stent

So Yoon Yoon, Ki-Nam Shim, Sun-Kyung Na, Jae-In Ryu, Hye-Won Yun, Seong-Eun Kim, Hye-Kyung Jung, Sung-Ae Jung

Department of Internal Medicine, Ewha Womans University School of Medicine, Seoul, Korea

An esophagobronchial fistula is a life threatening complication of esophageal carcinoma. Although placement of esophageal stents is the preferred treatment for esophagobronchial fistula, experience of stenting at the proximal esophagus is limited due to technical difficulties, patients' discomfort and high risk of complications. We report here a patient with an esophagobronchial fistula at the proximal esophagus who was successfully treated by insertion of a self expandable metal stent and earlobe fixation by a connective tube for preventing stent migration. A 46-year-old man had an inoperable esophageal carcinoma and lung abscess due to esophagobronchial fistula. Our first placement of stent at the proximal esophagus failed because of foreign-body sensations and stent migration to the proximal region. For the second time, treatment adding an earlobe fixation tool for anti-migration to the esophageal stent was successful with no serious procedure-related complications. The stent completely sealed off the fistula in the patient without further aspiration and serious discomfort symptoms. Lung abscess and pneumonia gradually improved. Anti-migration esophageal stents can be effective in preventing stent migration for the treatment of proximal esophagobronchial fistula due to malignancy. (*Korean J Helicobacter Up Gastrointest Res* 2014;14:199-202)

Key Words: Esophageal fistula; Stents

서 론

상부 식도에서 발생하는 암은 전체 식도암 중 약 7~10%를 차지하며, 대부분 진단 시에 국소적으로 진행되거나 원격전이 가 동반되어 있다.¹ 식도암 환자의 1~22% 가량에서 식도기관지누공이 발생할 수 있으며, 누공의 원인으로는 종양의 직접적인 기도 침범, 천공, 방사선 혹은 항암화학요법이나 레이저 치료 후와 식도 스텐트에 의한 합병증 등이 있다.² 식도기관지누공은 지속적인 흡인을 일으켜 이로 인한 폐렴이 발생하여 환자의 상태가 급격히 악화될 수 있다. 특히, 진행암으로 전신 상태가 악화된 상태에서 수술 시에는 술후 사망률이 증가하기 때문에 누공의 치료 방법으로 스텐트 삽입을 우선적으로 고려하게 된다. 하지만 지금까지 상부 식도의 스텐트 삽입은 천공, 폐흡인, 스텐트 이동과 같은 합병증 발생 위험과 환자가 느끼는 심한 이물감으로 인하여 시술에 어려움이 있었다.^{3,4} 저자들은 식도암으로 인해 상부 식도에 식도기관지누공이 발생한 환자에서

이동방지 스텐트를 삽입하고 연결관을 이용하여 고정함으로써 누공을 폐쇄하고 스텐트의 이동을 최소화한 1예를 경험하여 보고한다.

증 례

46세 남자가 4개월 전 상부 식도의 편평세포암으로 진단받고 완화적 방사선허암 동시치료 시행 후, 항암치료 14일째부터 발생한 고열을 주소로 입원하였다. 환자는 20갑년의 흡연력과 만성적인 음주력이 있었다. 첫 진단시의 위내시경검사에서 절치로부터 17 cm에서 아래로 약 15 cm에 이르는 넓은 크기의, 관강을 둘러싸고 있는 궤양 용기형 종괴가 관찰되었다. 내시경적 조직 검사 결과 편평세포암종으로 확인되었고 기관, 갑상선, 주변의 림프절 침범과 뼈전이가 동반되어 있는 절제 불가능한 진행성 식도암(stage IV)이 최종 진단되어 비수술적 치료인 방사선허암 동시치료를 4개월 동안 시행하였으며, 내시경적 경피 위루술을 통하여 위루관 영양 지원을 받았다. 2주기의 방사선허암 동시치료 후의 평가에서 식도 종괴의 50% 이상이 줄어들어 부분 관해를 보였다. 이후 환자는 3차례의 추가적 항암치료(5-fluorouracil+cisplatin)를 끝내고 2주 후에 고열과 가래, 호

Received: January 9, 2014 Accepted: August 21, 2014

Corresponding author: Ki-Nam Shim
Department of Internal Medicine, Ewha Womans University School of Medicine, 1071, Anyangcheon-ro, Yangcheon-gu, Seoul 158-710, Korea
Tel: +82-2-2650-2632, **Fax:** +82-2-2655-2076, **E-mail:** shimkn@ewha.ac.kr

Copyright © 2014 Korean College of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research

© The Korean Journal of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research is an Open-Access Journal. All articles are distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Fig. 1. Endoscopic finding of esophagobronchial fistula. It shows the large esophagobronchial fistula (arrow) at proximal esophagus. The lesion was located 20 cm from the incisors.

Fig. 2. Endoscopic finding of inserted esophageal stent. It shows the proximal part of the stent in hypopharynx.

흡곤란이 발생하여 흉부 CT와 위내시경검사를 시행하였다. 신체 검사에서 혈압 100/60 mmHg, 호흡수 20회/분, 맥박수 90 회/분, 체온 39.0°C였고 의식은 명료하였으며 좌측 폐야에서 수포음이 청진되었다. 말초 혈액 검사에서는 혈색소 9.1 g/dL, 백혈구수 13,210/mm³, 혈소판 331,000/mm³였으며, 동맥혈 검사에서 산소 분압 81.5 mmHg, 산소포화도는 95.5%였다. 혈청 생화학 검사에서 혈당 90 mg/dL, BUN 9 mg/dL, 크레아티닌 0.49 mg/dL, 총단백 5.7 g/dL, 알부민은 2.5 g/dL, CRP는 23.75 mg/dL였다. 흉부 CT에서 좌하엽의 액체 저류를 동반한 젖빛유리흔탁과 폐침윤 소견이 있었으며, 위내시경 검사에서는 상부식도조임근직하방(절치로부터 20 cm)에서 식도벽의 함몰과 함께 식도기관지누공이 관찰되었고 약 7 cm 아래에서 누공

Fig. 3. Radiologic finding of inserted esophageal stent (lateral view). It shows the inserted esophageal stent in proximal esophagus (arrow). The stent completely sealed off the fistula.

으로 의심되는 작은 크기의 누공 개구부가 추가로 발견되었다 (Fig. 1). 환자는 X선 투시촬영하에 자가확장성 금속 스텐트를 삽입하였고 내시경으로 확인 시 스텐트의 기시부가 상부식도조임근 상방에서 관찰되었다. 시술 후에도 환자는 발열 상태가 지속되고 심한 이물감과 구역감을 호소하였으며 확인 결과 스텐트가 근위부로 이동하여 스텐트의 기시부가 육안적으로 구강 내에서 확인되어 스텐트를 내시경적으로 제거하였다. 누공의 치료를 위해서는 상부 식도에서 고정되는 스텐트의 재삽입이 필요하다고 판단되어 스텐트 기시부에 부착된 실을 고무 튜브로 씌워서 환자의 귓볼에 걸 수 있게 고안한 방법(Shim's technique)⁵으로 막부착형 금속 스텐트(CHOOSTENT, Covered, MI Tech, Seoul, Korea; 8 cm)를 성공적으로 삽입하였다(Fig. 2, 3). 그리고 중부 식도의 또 다른 식도기관지누공 부위에도 같은 종류의 스텐트(CHOOSTENT, Covered, MI Tech; 12 cm)를 삽입하고 시술을 마쳤으며 천공이나 출혈 등의 급성 합병증은 발생하지 않았다. 시술 후 고무 튜브로 고정된 것으로 인한 불편감이 있었지만 추적 관찰한 X선 검사에서 스텐트의 이동은 관찰되지 않았다. 폐렴과 폐농양이 호전을 보이면서 더 이상 발열과 호흡 곤란이 없었으나 경구섭취는 폐병변의 경과를 관찰하며 추후 서서히 진행하기로 결정하여 위루관을 통한 영양공급을 유지하였고 스텐트 삽입 3주 후에 퇴원하였다. 스텐트 삽입 6주 후 환자는 식도암의 진행으로 전신 상태가 악화되어 재입원하였으며 더 이상 적극적 치료는 받지 않고 사망하였다.

고 찰

식도암은 대부분 진행된 질병 단계에서 진단이 되기 때문에 예후가 나쁜 암 중에 하나이며, 절제 불가능한 진행성 식도암 (stage IV)의 경우 50%의 환자에서 1년 내에 사망에 이른다고 보고하고 있다.⁶ 따라서 식도암 환자의 치료에서는 흡인과 폐렴의 예방, 영양 상태의 개선과 전반적인 삶의 질 향상 등의 보존적 치료의 비중이 크고 식도기관지누공이나 협착과 같은 합병증이 있을 시에 이에 대한 적절한 치료로 환자의 기능적인 측면을 유지하는 것이 중요하다.

악성종양에서 발생한 식도기관지누공의 식도 삽관 시술에 있어 1990년대 초까지는 플라스틱 재질의 스텐트를 사용하였으나, 천공, 출혈, 압박괴사, 튜브 막힘, 스텐트 이동과 같은 합병증 발생률이 약 15~40%로 높았다.⁷ 그러나 최근에는 다양한 종류의 막부착형 자가확장성 금속 스텐트(covered self-expandable metal stent)가 개발되어 시술의 합병증을 줄였으며 높은 누공 폐쇄 성공률(73~100%)을 보고하고 있다.⁸⁻¹⁰ 자가확장성 금속 스텐트는 삽입수가 비교적 간단하며 삽입 시 조직 손상을 줄일 수 있고, 크기와 모양이 다양하여 병변의 크기와 주변 조직의 상태에 따라서 스텐트 선택이 용이하다는 것이 장점으로, 절제가 불가능한 중하부의 식도암이나 위암의 경우 그 치료 효과가 입증되어 널리 사용되고 있다. 그러나 막부착형 스텐트는 종양 내성장과 이로 인한 협착을 예방할 수 있는 반면에 삽입 후의 스텐트의 위치 이동이 빈번하게 발생할 수 있으며, 특히 상부 식도의 경우 스텐트 이동을 비롯한 합병증 우려로 인하여 스텐트 삽입의 안정성과 효과에 대한 논의가 지속되고 있다. 상부 식도는 6번 경추에서 1번 흉추 사이의 부분으로 절치부터 대략 15~19 cm에 해당되며 높은 압력의 상부식도조임근으로 인하여 식도벽의 긴장도가 높다.¹¹ 이로 인하여 스텐트 삽입이 기술적으로 어려우며 천공과 폐흡인, 하인두로의 스텐트 이동, 기도 폐쇄와 같은 합병증의 발생 가능성이 높고, 특히 이물감으로 인하여 환자의 불편감이 심하여 스텐트 삽입에 적응증이 되지 않거나 매우 제한적으로 사용하였던 것이 통상적이다. 하지만 최근에 상부 식도의 스텐트 삽입이 시도되고 있으며, 이에 대한 성공률과 합병증 발생에 대한 평가 및 상부 식도에서의 시술의 적절성에 대한 연구가 진행되고 있다.^{12,13} 22명의 상부 식도 협착 환자에서 자가확장성 금속 스텐트 삽입을 보고한 연구에서는 93%의 높은 시술 성공률을 보였고, 82%의 환자에서 근위부의 스텐트 이동이나 천공, 사망과 같은 합병증 뿐 아니라 목의 이물감이 발생하지 않았다.⁴ 또한 상부 식도에 스텐트 삽입시 가장 해결하기 어려운 문제 중 하나인 환자의 이물감을 최소화 하기 위하여 스텐트 기시부의 깔대기 부분의 길이를 짧게 만든 디자인을 고안하여 3명의 환자

에서 스텐트 시술 후 추적관찰 시 이물감, 천공, 스텐트 이동, 폐흡인의 발생 없이 3~5개월 가량 증상이 완화된 증례들을 보고한 바 있다.¹⁴ 최근 상부 식도에 위치한 악성 협착이나 식도 기관지누공의 치료를 위하여 자가확장성 금속 스텐트 삽입을 시도한 104명의 환자들을 후향적으로 확인한 대규모 연구에서는 대부분 시술이 성공적으로 이루어졌으며(96%), 누공 환자의 79%에서 적절한 누공의 폐쇄가 되었으나, 21%에서 주요 합병증이 발생한 것으로 분석되었다.¹⁵ 따라서 병변의 위치가 상부 식도조임근과 근접하였을 경우에는 여러 가지 합병증 발생 가능성이 높은 점을 고려하여 협착이나 누공 주위의 식도 점막의 상태, 정확한 병변의 위치, 기관 눌림 가능성 등을 면밀히 확인한 후에 시술하는 것이 중요하다.

본 증례에서는 처음 시도한 막부착형 스텐트 삽입시, 스텐트가 근위부인 하인두로 이동하여 제거하였는데 이는 항암방사선 동시치료로 인하여 누공 주위 식도 점막의 함몰과 유착성이 동반되어 있어 스텐트가 고정되지 못하고 이동하였을 것으로 생각된다. 환자는 누공의 합병증으로 폐렴, 폐농양이 악화되고 있어 누공 폐쇄가 급선무인 상황이었으므로 스텐트의 이동이 발생하지 않도록 하는 방법을 추가하여 시술하게 되었으며, 스텐트와 연결된 실을 통한 외부 고정 방법(Shim's technique)⁵으로 스텐트 이동을 성공적으로 예방하였다. 이 방법은 스텐트의 이동이 빈번하게 일어나는 위식도접합부의 협착 병변에 삽입하는 하부 식도 스텐트 시술 시에 고안되어, 스텐트 시술을 받은 61명의 환자에서 평균 7.5개월 동안 관찰 시 스텐트의 이동 없이 효과적으로 치료하였음을 보고한 바 있다.¹⁶ 상부 식도의 병변에서는 스텐트가 근위부로 이동할 가능성이 있으므로 콧볼에 고정하는 외부 고정 방법으로 스텐트 이동을 완전히 예방하기에 제한점이 있으나, 본 증례에서와 같이 식도벽의 함몰이 동반되어 있어 스텐트가 일정 기간 적절한 위치에 고정되어 있기 어려운 경우 스텐트가 점막에 안착될 때까지 위, 아래로 이동하지 않도록 하는 외부 고정 장치가 효과적일 수 있다. 스텐트의 이동 방지를 위하여 시도되는 또 다른 방법으로 지혈용 클립 (clip)을 이용하여 고정함으로써 의미 있게 이동률을 감소시킨 연구가 있으며,¹⁷ 스텐트 바깥쪽에 이동방지 지주(strut)를 부착하거나 이중층으로 스텐트를 디자인하는 방법 등이 개발되고 있다.^{18,19} 또한 상부 식도에서는 초음파 유도 하에 경피적으로 봉합하여 스텐트를 고정하는 침습적 방법도 고안되었으나 효과나 실용성에 있어서 아직 불명확하여 추가적인 연구가 필요하다.²⁰ 증례에서는 환자의 불편감이 있었지만, 목이나 가슴의 통증과 이물감은 심하지 않아 스텐트를 유지하였고 심각한 초기 합병증은 발생하지 않았다.

여러 연구에서 악성 종양에 의한 식도기관지누공 환자에서 스텐트 삽입은 보존적 치료나 위루술만 시행받은 환자들과 비교

시 생존기간 연장과 삶의 질 증가에 있어 의미 있게 좋은 예후를 보여주고 있다.^{8,10} 식도 상부의 스텐트 삽입 역시 예전에는 재시술 비율이 높고 합병증 발생이 많아 시술에 어려움이 있었으나 몇몇의 연구에서의 성공적으로 시행한 증례^{4,12,13,15}를 통하여 적절한 스텐트를 선택하고 위험요인을 고려한다면 상부 식도기관지누공에서도 스텐트 치료가 우선적으로 시행될 수 있다. 상부 식도에 유리한 스텐트는 머리와 목을 움직일 때 통증을 줄이기 위해서 유연한 재질을 사용하여 삽입시에 하인두에 상처를 내지 않으면서 구역감과 이물감을 줄이기 위하여 부드러운 가장자리를 가진 적절한 직경의 스텐트가 필요하며, 본 증례에서와 같이 누공의 크기가 크고 스텐트 이동의 가능성이 있는 경우에는 막부착형금속 스텐트에 단기간 외부 고정 장치를 추가하여 스텐트 이동을 최소화하고 누공 폐쇄의 성공률은 높일 수 있다. 아직까지는 상부 식도 스텐트 삽입의 장기간 효과 지속성이나 재발에 대한 연구가 부족하나, 누공의 위치, 스텐트 이동, 재발 방지를 고려한 여러 가지 새로운 디자인의 식도 스텐트의 개발이 진행되고 있어 향후 합병증을 줄일 수 있을 것이라 기대된다.

저자들은 말기 식도암 환자의 상부 식도에 위치한 식도기관지누공에서 막부착형 자기확장성 금속 스텐트 삽입과 스텐트의 이동을 예방하기 위한 외부 고정으로 합병증 없이 성공적인 누공의 폐쇄를 보인 1예를 문헌 고찰과 함께 보고한다.

REFERENCES

- Goodner JT. Treatment and survival in cancer of the cervical esophagus. *Am J Surg* 1969;118:673-675.
- Balazs A, Galambos Z, Kupcsulik PK. Characteristics of esophagorespiratory fistulas resulting from esophageal cancers: a single-center study on 243 cases in a 20-year period. *World J Surg* 2009;33:994-1001.
- Gislason GT, Pasricha PJ. Crossing the upper limit: esophageal stenting in the proximal esophagus. *Dysphagia* 1997;12:84-85.
- Macdonald S, Edwards RD, Moss JG. Patient tolerance of cervical esophageal metallic stents. *J Vasc Interv Radiol* 2000;11:891-898.
- Shim CS. Esophageal stent for cervical esophagus and esophagogastric junction. *Clin Endosc* 2012;45:235-239.
- Enzinger PC, Mayer RJ. Esophageal cancer. *N Engl J Med* 2003;349:2241-2252.
- Weigert N, Neuhaus H, Rösch T, Hoffmann W, Dittler HJ, Classen M. Treatment of esophagorespiratory fistulas with silicone-coated self-expanding metal stents. *Gastrointest Endosc* 1995;41:490-496.
- Shin JH, Song HY, Ko GY, Lim JO, Yoon HK, Sung KB. Esophagorespiratory fistula: long-term results of palliative treatment with covered expandable metallic stents in 61 patients. *Radiology* 2004;232:252-259.
- Tomaselli F, Maier A, Sankin O, Woltsche M, Pinter H, Smolle-Jüttner FM. Successful endoscopic sealing of malignant esophageotracheal fistulae by using a covered self-expandable stenting system. *Eur J Cardiothorac Surg* 2001;20:734-738.
- Balazs A, Kupcsulik PK, Galambos Z. Esophagorespiratory fistulas of tumorous origin. Non-operative management of 264 cases in a 20-year period. *Eur J Cardiothorac Surg* 2008;34:1103-1107.
- Cindoruk M, Karakan T. Management of cervical esophageal strictures with self-expanding metallic stents. *Turk J Gastroenterol* 2006;17:294-297.
- Profilì S, Meloni GB, Feo CF, et al. Self-expandable metal stents in the management of cervical oesophageal and/or hypopharyngeal strictures. *Clin Radiol* 2002;57:1028-1033.
- Eleftheriadis E, Kotzampassi K. Endoprosthesis implantation at the pharyngo-esophageal level: problems, limitations and challenges. *World J Gastroenterol* 2006;12:2103-2108.
- Shim CS, Jung IS, Bhandari S, et al. Management of malignant strictures of the cervical esophagus with a newly-designed self-expanding metal stent. *Endoscopy* 2004;36:554-557.
- Verschuur EM, Kuipers EJ, Siersema PD. Esophageal stents for malignant strictures close to the upper esophageal sphincter. *Gastrointest Endosc* 2007;66:1082-1090.
- Shim CS, Cho YD, Moon JH, et al. Fixation of a modified covered esophageal stent: its clinical usefulness for preventing stent migration. *Endoscopy* 2001;33:843-848.
- Vanbiervliet G, Filippi J, Karimjee BS, et al. The role of clips in preventing migration of fully covered metallic esophageal stents: a pilot comparative study. *SurgEndosc* 2012;26:53-59.
- Verschuur EM, Homs MY, Steyerberg EW, et al. A new esophageal stent design (Niti-S stent) for the prevention of migration: a prospective study in 42 patients. *Gastrointest Endosc* 2006;63:134-140.
- Uitdehaag MJ, van Hooft JE, Verschuur EM, et al. A fully-covered stent (Alimaxx-E) for the palliation of malignant dysphagia: a prospective follow-up study. *Gastrointest Endosc* 2009;70:1082-1089.
- Blackmon SH, Santora R, Schwarz P, Barroso A, Dunkin BJ. Utility of removable esophageal covered self-expanding metal stents for leak and fistula management. *Ann Thorac Surg* 2010;89:931-936.