

CASE REPORT

신결석에 의한 신우-십이지장 누공 1예

박병규, 김광하

부산대학교 의학전문대학원 내과학교실 및 부산대학교병원 의생명연구원

Pyeloduodenal Fistula Caused by Renal Calculi

Byeong Kyu Park and Gwang Ha Kim

Department of Internal Medicine, Pusan National University School of Medicine and Biomedical Research Institute, Pusan National University Hospital, Busan, Korea

A fistula between the renal pelvis and duodenum (pyeloduodenal fistula) is very rare. It can occur spontaneously or after trauma to one of these organs. A spontaneous pyeloduodenal fistula is usually caused by chronic inflammation, including reactions to foreign bodies, nephrolithiasis, benign and malignant neoplasms, as well as pyogenic infections. The main treatment to date has been surgery. We encountered one case of pyeloduodenal fistula found during an evaluation for abdominal discomfort in a 39-year-old female. Pyeloduodenal fistula was diagnosed by upper gastrointestinal endoscopy and abdominal computed tomography, and it was caused by direct invasion of nephrolithiasis. Surgical operation was recommended, but the patient refused. The patient has been free of symptoms for four years. Herein, we report an unusual case of pyeloduodenal fistula without surgical management and relevant literature review. (*Korean J Gastroenterol* 2018;71:229-233)

Key Words: Duodenum; Intestinal fistula; Kidney; Staghorn calculi

서론

신우-위장관 누공(pyelo-alimentary fistula)은 드문 질환으로 신장과 주변 위장관이 유착 후 파열되어 누공이 형성되는 것으로, 그중 신우-대장 누공(pyelo-colic fistula)이 가장 흔하다.¹ 신우-십이지장 누공(pyelo-duodenal fistula)은 더욱 드물어 1893년에 처음 보고된 이후 전 세계적으로 약 80여 증례만이 보고되고 있다.² 병인에 따라 자발성과 외상성으로 분류되며, 자발성 누공의 원인에는 결핵을 비롯한 감염성 질환과 양성 및 악성 종양 등이 있지만 신결석에 의한 발생이 가장 흔한 것으로 알려져 있다.^{3,4} 국내에는 요도결석(ureteral stone)과 동반된 신우신염 환자에서 신우-십이지장 누공의 보고는 1예 있었으나,⁵ 신결석의 직접 침범에 의한 신우-십이지

장 누공의 보고는 없었다. 또한 신우-십이지장 누공의 치료에 있어 수술적 치료가 아닌 경과 관찰을 한 예는 없었다. 이에 저자들은 식후 불편감으로 내원한 39세 여자에서 신결석에 의해 발생한 신우-십이지장 누공 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

증례

39세 여자가 수개월 전부터 시작된 간헐적인 상복부 불편감과 속쓰림으로 내원하였다. 환자는 8세에 교통사고로 하복부 외상과 양측 대퇴부 골절이 있었고, 이후 침상생활을 하며 주로 누워 지냈다. 이후 수차례 신결석과 신우신염으로 치료를 받았고, 지속적으로 신기능이 나빠져서 25세부터 혈액 투

Received December 25, 2017. Revised February 6, 2018. Accepted February 19, 2018.

© 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.

Copyright © 2018. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 김광하, 49241, 부산시 서구 구덕로 179, 부산대학교 의학전문대학원 내과학교실 및 부산대학교병원 의생명연구원

Correspondence to: Gwang Ha Kim, Department of Internal Medicine, Pusan National University School of Medicine and Biomedical Research Institute, Pusan National University Hospital, 179 Gudeok-ro, Seo-gu, Busan 49241, Korea. Tel: +82-51-240-7869, Fax: +82-51-244-8180, E-mail: doc0224@pusan.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

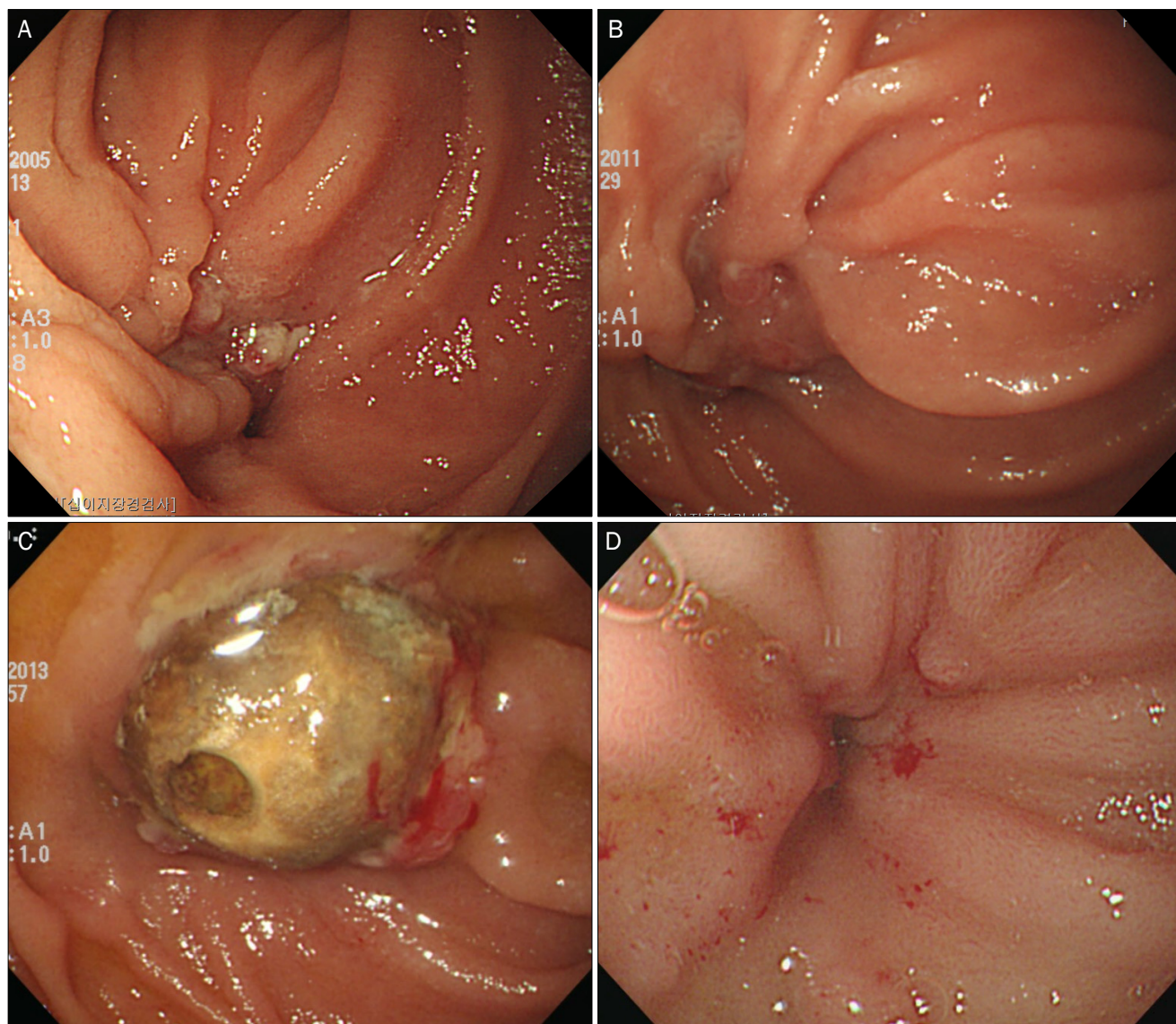


Fig. 1. Serial endoscopic findings. (A) At endoscopy 8 years ago, a shallow ulcerative lesion with nodular change and convergence of mucosal folds is observed at the second portion of the duodenum. (B) Endoscopy taken 2 years ago reveals an improvement of previous ulcerative lesion, but convergence of mucosal folds seems to still exist. (C) Endoscopy at visit reveals a brownish stone at the center of converging mucosal folds, protruding from the outside into the duodenal lumen. (D) Follow-up endoscopy 4 years later reveals a subsided stone and closed fistula.

식을 시작하여 개인병원에서 주 3회 혈액투석을 받고 있었다. 고혈압과 당뇨병은 없었으며 흡연력 및 음주력도 없었다. 내원 3년 전부터 간헐적인 상복부 불편감이 있어 양성자 펌프 억제제 및 제산제를 불규칙적으로 복용하고 있었다.

내원 당시 활력 징후는 혈압 100/60 mmHg, 맥박수 92회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.1°C였으며, 키 141 cm, 체중 33 kg으로 마른 편이며 만성 병색을 보였다. 신체 검사에서 복부는 부드러웠고 상복부에 약간의 압통이 있었으나 반발통은 없었으며, 촉진되는 종물은 없었다. 양측 늑골척추각 압통은 없었고 측부 종물도 촉진되지 않았다.

내원 시 시행한 혈액 검사는 혈색소 10.4 g/dL, 백혈구 6,750/mm³

(호중구 76.6%), 혈소판 395,000/mm³였다. 혈청 생화학 검사에서 아스파르트산 아미노전달효소 8 IU/L, 알라닌 아미노전달효소 6 IU/L, 총 빌리루빈 0.20 mg/dL, 알부민 4.5 g/dL, 혈액 요소질소 10.7 mg/dL, 크레아티닌 1.95 mg/dL, 요산 4.3 mg/dL, 칼슘 8.0 mg/dL, 인 5.6 mg/dL로 만성 신부전 시 관찰되는 소견을 보였으며, C-반응성 단백질은 0.65 mg/dL였다.

과거 내시경 검사 기록을 검토해 보았을 때, 내원 8년 전 상복부 불편감으로 시행한 상부위장관 내시경 시 위 궁륭부 궤양과 함께 십이지장 제2부에는 주름의 집중과 중심에 결절양 변화를 동반한 궤양성 병변이 관찰되었다(Fig. 1A). 이 당시 십이지장 병변에 대해 조직 검사를 시행하였으며, 병리 결

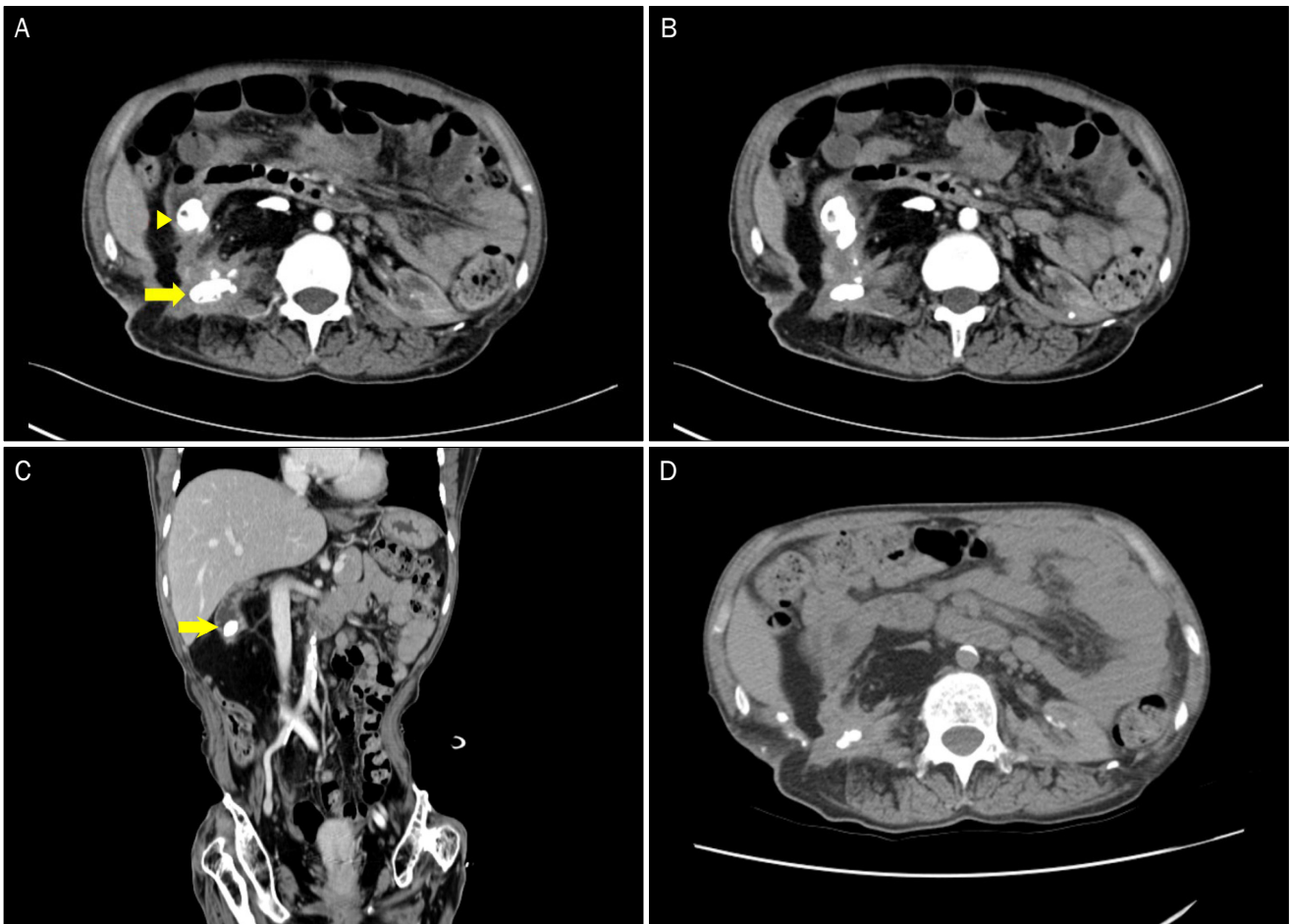


Fig. 2. Abdominal computed tomography. (A) In the right kidney, parenchymal calcification and staghorn calculi (arrow) are observed. The fragments of calculi invade into the duodenum (arrowhead). (B) There was a fistula between the second part of the duodenum and the right kidney. (C) On a coronal view, the fragments of calculi invading into the duodenum are clearly seen (arrow). (D) Follow-up computed tomography 4 years later reveals an improvement of calculi invasion of the duodenum.

과에서는 육아 조직의 증식이 관찰되었다. 이후 추적 상부위 장관 내시경 검사에서는 위궤양은 호전되었고, 십이지장 제2부 병변의 주름 집중 소견은 계속 관찰되었지만 중심의 궤양성 변화는 감소되었다(Fig. 1B). 이번엔 내원 시 위궤양 재발 여부 등을 평가하기 위해 상부위장관 내시경 검사를 다시 시행하였다. 식도와 위에는 이상 소견이 없었으며, 이전 내시경 검사 시 관찰되었던 십이지장 제2부의 주름이 집중된 병변의 중심에 갈색의 결석으로 추정되는 이물이 십이지장 내강으로 돌출되어 있었다(Fig. 1C). 생검 검사로 눌러 보았을 때 단단하였고, 십이지장 벽에 고정되어 있었다. 이후 시행한 복부 전산화단층촬영 검사에서 양측 신장의 심한 위축과 우측 신장의 실질내에 석회화와 신녹각석(staghorn calculi)이 관찰되었다. 신녹각석은 파편화되어 신장과 신 실질 밖으로 산재되어 있었고, 파편화된 결석 중 다수는 우측 신장 앞에서 십이지장 제2부의 후벽을 따라 위치하고 있었다. 이 중 가장 큰 결석이 십이지장 내강으로 돌출되어 있고 누공으로 십이지장과 신

장이 연결되어 있었다(Fig. 2A-C). 내시경 소견과 복부 전산화단층촬영 소견을 토대로 우측 신 녹각석에 의한 신우-십이지장 누공으로 진단하였다. 누공을 막고 있는 결석으로 인해 복막염 등의 소견은 없었으나 결석이 빠질 시에 생길 교통과 천공의 위험성을 고려하여 비뇨기와 및 외과 협진하에 수술을 계획하였다. 하지만 환자는 당장에 불편감이 크지 않다며 수술을 거부하였다. 항생제 등 약제 복용을 고려하였지만 환자는 만성 신부전으로 심한 신장의 위축이 있고 요 생성 등의 신장기능이 소실되어 혈액투석을 하고 있었기에 요 역류로 인한 감염 등의 문제는 없을 것으로 판단되었다. 또한 혈액 검사에서도 감염을 시사할 만한 소견이 없었다. 이에 항생제 복용 없이 외래에서 관찰하기로 하였다. 환자는 간헐적인 불편감이 있을 때만 소화기내과에 내원하여 증상 조절을 위한 약제를 복용하였다. 수차례 내시경 검사와 전산화단층촬영 검사를 계획하였지만 환자는 불편감이 없다는 이유로 거부하였다. 신우-십이지장 누공으로 진단된 후 4년째 내시경 검사와 전산화단

충촬영 검사를 시행하였다. 상부위장관 내시경 검사에서는 이전에 관찰되었던 십이지장 제2부의 결석은 소실되고 누공의 개구부는 막혀 있었다(Fig. 1D). 복부 전산화단층촬영 검사에서는 십이지장을 침범하였던 녹각석은 소실되었고, 신우-십이지장 누공의 흔적만 관찰되었다(Fig. 2D). 환자는 외래에서 복부 불편감을 호소하지 않았으며 혈액 검사에서도 백혈구 $5,020/\text{mm}^3$ (호중구 63.1%), C-반응성 단백질은 0.11 mg/dL 로 감염의 증거는 없었다. 이를 종합하여 이전에 십이지장 제2부에서 관찰되었던 결석이 십이지장내로 배출이 되었다고 판단되었으나, 결석이 소실된 정확한 시점을 알 수는 없었다. 현재 외래에서 경과 관찰 중이며, 향후 감염 등의 문제가 있을 시에는 수술 등 적극적인 치료를 계획하고 있다.

고 찰

십이지장과 신장은 후복막에 위치하며 십이지장 제2부의 후벽은 우측 신장과 인접해 있다. 이 부위는 상대적으로 고정되어 있고 다른 장기에 의해 보호를 받지 못하기 때문에 신장과 주변에 염증이 있을 때 쉽게 영향을 받는다.^{6,7} 본 증례에서도 동일하게 우측 신장과 십이지장 제2부에 누공이 발생하였다. 신우-십이지장 누공은 십이지장 질환보다 신장 질환이 원인인 경우가 많다. 원인에 따라 자발성과 외상성으로 분류되며, 80%가 자발성으로 알려져 있다.⁸ 자발성 누공의 원인 중 가장 흔한 것은 신결석에 의한 이차적인 누공의 발생이다. 결석이나 염증에 의해 신우가 막히게 되면 요 폐쇄와 만성 신우신염이 생기고, 이로 인해 신장 주변에 염증이 생긴다. 염증이 지속되면 농양을 형성하고 인접 기관으로의 파열을 초래할 수 있는데, 이것이 결석에 의한 이차적인 누공 발생의 병태생리기전이다.⁸ 국내에 보고된 신우-십이지장 누공의 증례도 요로 결석에 의해 요 폐쇄와 신우신염이 생기고, 이로 인해 누공이 형성된 경우였다.⁵ 반면 드물지만 본 증례처럼 신우신염 등의 염증을 동반하지 않고 신결석이 십이지장으로 지속적으로 압박 괴사를 유발하여 누공이 발생한 경우도 있다.⁹ 이 증례에서는 환자는 흑색변으로 내원하여 전산화단층촬영 검사와 상부위장관 내시경 검사 후에 결석의 직접 침범에 의한 신우-십이지장 누공으로 진단되었다. 환자는 출혈이 지속되어 시행한 개복술에서 추가적으로 우측 신장암이 진단되었고, 결석뿐 아니라 신장암도 누공의 원인으로 밝혀졌다. 앞선 증례와 달리 본 증례는 신우신염이나 암 등의 동반 없이 신장에서 형성된 결석이 십이지장을 직접 압박하여 신우-십이지장 누공이 발생하였다는 점과 국내에서 결석의 직접 침범으로 발생한 신우-십이지장 누공의 첫 예라는 점에서 의의가 있다.

신우-십이지장 누공의 외상성 원인에는 수술에 의한 경우가 많고, 이물질 섭취, 낙상 등의 사고 등이 있으며, 최근에는

경피 신루 설치술(percutaneous nephrostomy)과 체외 충격파 쇄석술(extracorporeal shock wave lithotripsy), 경피 신 쇄석술(percutaneous nephrolithotomy) 등 의료 시술에 의한 발생이 보고되고 있다.^{6,10} 외상 후 신장 주변으로 혈액이나 소변이 유출되고, 이는 신주위 농양을 형성하여 결국 십이지장 내로 누공을 만들 수 있다.¹¹

신우-십이지장 누공은 소화기 및 비뇨기에 영향을 주어 다양한 증상을 보일 수 있다. 가장 흔한 증상으로 지속적인 우측 옆구리 통증이 있으며, 그 외에도 상복부 통증과 소화불량, 체중감소가 있다. 또한 발열, 오한 등의 전신 증상과 국소적 동통, 빈뇨 및 혈뇨 등의 비뇨기계 증상을 호소하는 경우도 있다. 혈액 검사에서 백혈구 증가와 빈혈 소견이 보일 수 있으며, 그 외에도 농뇨, 세균뇨, 단백뇨 등의 검사실 소견이 관찰될 수 있다. 신체 검사에서는 발열과 측부 압통, 측부 종물이 있을 수 있다.⁴ 본 환자의 경우 만성 신부전으로 15년 전부터 혈액 투석을 하여 소변이 나오지 않는 상태였으며, 신우-십이지장 누공은 다수의 결석으로 막혀 있어 신장과 십이지장 사이에 교통은 없었다. 이와 같은 이유로 간헐적인 식후 상복부 불편감만 있었고, 혈액 검사 및 복부 전산화단층촬영 검사에서는 복막염 등의 염증 소견은 없었다.

신우-십이지장 누공 발생 시 상기 언급된 바와 같이 다양하고 비특이적인 증상으로 나타날 수 있기 때문에 임상적으로 진단은 쉽지 않으며 영상학적 검사가 필요하다. 신장기능이 양호한 경우 정맥조영술 또는 전산화단층촬영 검사를 할 수 있고, 신장기능이 나쁜 경우에는 역행성 신우조영술 또는 누공조영술을 사용할 수 있다.⁸ 본 증례에서는 만성 신부전으로 역행성 신우조영술 또는 누공조영술을 고려하였지만, 양측 신장의 크기가 많이 감소된 상태였고 신우 내에 다발성의 결석이 있다는 점을 고려하여 전산화단층촬영 검사를 시행하였다. 결국 상부위장관 내시경 검사와 전산화단층촬영 검사로 신우-십이지장 누공을 진단할 수 있었다.

신우-십이지장 누공의 치료는 원인 질환과 신 손상의 정도 등을 고려하여 결정한다. 신기능이 양호한 경우 비수술적 치료를 통해 신장을 보존할 수 있는데, 치료법에는 전신 항생제와 경피 신루 설치술 등을 이용한 요 폐쇄 해결 및 이물 제거가 있다. 이후 비뇨기와 위장관 연결을 제거하는 수술이 필요할 수 있다.^{8,12} 환자의 신기능이 좋지 않은 경우에는 수술적 치료를 하며 대부분의 환자들이 여기에 해당된다. 수술법은 주로 신장 절제술과 십이지장 폐쇄 그리고 배액관을 유지하는 방법이다.¹³⁻¹⁵ 이러한 경우 비수술적 치료를 하게 되면 치료 반응이 좋지 않아 이환율과 사망률이 증가하며 신장 보존율도 낮다고 알려져 있다.¹⁶ 28예의 신-십이지장 누공 환자를 대상으로 한 연구에서 신장 절제술과 십이지장 폐쇄가 시행된 21예에서는 예후는 좋았지만, 보존적 치료를 받은 7예에서는 재발

성 감염, 패혈증과 같은 합병증 등으로 예후가 좋지 않았다.⁴ 본 증례에서는 환자는 심각한 상태는 아니었지만, 고정된 결석이 빠져 교통이 생기면 음식물과 소화액 등이 복강 또는 신장 내로 유출되어 복막염 등의 심각한 전신 감염이 발생할 수 있었기에 수술이 고려되었다. 하지만 환자는 건강 상태가 좋지 않고 큰 불편감이 없다는 이유로 수술을 거부하였고, 이에 외래에서 경과 관찰하였다. 4년 후 추적 검사에서 십이지장을 침범하였던 결석이 소실되었고, 환자는 수개월 동안 전신 증상이 없었으며, 혈액 검사에서도 감염 등의 증거가 없었기 때문에 저자들은 현재도 외래에서 경과 관찰을 하고 있다. 본 증례는 신우-십이지장 누공의 치료에 있어 수술적 또는 보존적인 치료가 아닌 경과 관찰을 하여 진단 후 4년이 지난 시점까지 양호한 경과를 보였으며, 그 기간 동안 결석이 저절로 배출된 예로, 저자들이 아는 한 신우-십이지장 누공에서 이러한 경우가 처음이라는 데 의의가 있다. 일반적으로 신우-십이지장 누공에서 경과 관찰의 예후는 나쁘지만 본 증례의 경과가 양호하였던 것은, 첫째로 만성 신부전으로 소변 생성 등의 신장기능이 상실되었다는 점, 둘째로는 신장에서 형성된 신석각석이 커져서 누공을 형성하는 과정이 오랜 시간에 걸쳐 이루어졌다는 점, 셋째로는 파편화된 결석들이 신우-십이지장 누공의 교통을 막고 있었다는 점 때문인 것으로 판단된다. 그리고 십이지장을 침범한 결석이 소실된 후에도 전신 증상이 없었던 것은 앞에서 언급한 바와 같이 소변 생성이 없으며, 신장측 누공의 개구부가 결석에 의해 막혀 있었고, 아울러 누공의 생성처럼 결석의 소실 과정도 오랜시간에 걸쳐 서서히 진행되어 누공의 교통이 주변 조직에 의해 압박되고 소실되었기 때문으로 추측된다. 복부 전산화단층촬영 검사에서도 누공의 흔적은 있었으나 저명한 교통은 없었다. 하지만, 본 환자가 예외적으로 경과 관찰을 할 수밖에 없었던 경우로, 이러한 과정이 다른 환자에서 발생한 신우-십이지장 누공의 치료에 적용하기에는 무리가 있다.

요약하면 본 증례는 상복부 불편감으로 내원한 환자에서 상부위장관 내시경 검사와 복부 전산화단층촬영 검사를 통해 신결석의 직접 침범에 의한 신우-십이지장 누공이 진단된 흥미로운 증례이다. 신우-십이지장 누공은 주로 수술적 치료를 필요로 하는데, 본 증례에서는 환자가 만성 신부전으로 신기능을 상실하였고 전신 증상이 없었기에 경과 관찰을 하였고,

4년간 양호한 경과를 보였다는 점에서 의미가 있다.

REFERENCES

1. Connor J, Schwartz M, Lehrhoff B. Nephrocolic fistula in association with a staghorn calculus discovered intraoperatively. *Int Urol Nephrol* 1991;23:113-116.
2. Hode E, Josse C, Mechaouri M, Garnier L, Verhaeghe P. Pyeloduodenal fistula. Apropos of a new case. *J Chir (Paris)* 1990;127:281-285.
3. Abeshouse B. Renal and ureteral fistula of the visceral and cutaneous types; a report of four cases. *Urol Cutaneous Rev* 1949; 53:641-674.
4. Rodney K, Maxted WC, Pahira JJ. Pyeloduodenal fistula. *Urology* 1983;22:536-539.
5. Lee KN, Hwang IH, Shin MJ, et al. Pyeloduodenal fistula successfully treated by endoscopic ligation without surgical nephrectomy: case report. *J Korean Med Sci* 2014;29:141-144.
6. Ginsberg DA, Stein JP, Grossfeld GD, Tarter T, Skinner DG. Traumatic pyeloduodenal fistula: a case report and review of the literature. *Urology* 1996;47:588-591.
7. Ross J, Tanna D. Pyeloduodenal fistula. *J R Coll Surg Edinb* 1974;19:51-53.
8. Morris DB, Siegelbaum MH, Pollack HM, Kendall AR, Gerber WL. Renoduodenal fistula in a patient with chronic nephrostomy drainage: a case report. *J Urol* 1991;146:835-837.
9. Poon JT, Tam PC, Chu KM. Pyeloduodenocolic fistula. *Asian J Surg* 2003;26:186-188.
10. McElwee TB, Randall RD Jr, Meredith JH. Duodenoureteral fistula. *South Med J* 1983;76:1587-1588.
11. Batch AJ, Amery AH, Reddy ER. Pyeloduodenal fistula: a case report and review of the literature. *Br J Surg* 1979;66:31-34.
12. Morris SB, Knight MJ, Shearer RJ. Pyelo-duodenal fistula: a new method of closure. *Br J Urol* 1994;73:464-465.
13. Suhler A, Schimmel F, Viville C. Intestinal urinary fistulas of renal and pelvis origin. *Ann Urol (Paris)* 1995;29:8-10.
14. Tan SM, Teh CH, Tan PK. Duodeno-ureteric fistula secondary to chronic duodenal ulceration. *Ann Acad Med Singapore* 1997;26: 850-851.
15. Bleacher JC, Boline GB, Decter RM, Conter RL. Pyeloduodenal fistula: a previously undescribed complication of Stamm gastrostomy. *J Pediatr Surg* 1993;28:1579-1581.
16. Evans PF. Spontaneous pyelo-jejunal fistula. *Postgrad Med J* 1990;66:965-967.