

CASE REPORT

대량 출혈을 주소로 내원한 공장의 Dieulafoy 병변 1예

한민석, 박병규, 이상훈, 양희철¹, 홍영기², 최윤정³
국민건강보험공단 일산병원 내과, 영상의학과¹, 외과², 병리학과³

A Case of Dieulafoy Lesion of the Jejunum Presented with Massive Hemorrhage

Min Seok Han, Byung Kyu Park, Sang Hun Lee, Heui Chul Yang¹, Young Ki Hong² and Yoon Jung Choi³

Departments of Internal Medicine, Diagnostic Radiology¹, General Surgery² and Pathology³, National Health Insurance Corporation Ilsan Hospital, Goyang, Korea

The Dieulafoy lesion is a rare cause of severe gastrointestinal hemorrhage. Although it may occur anywhere in the gastrointestinal tract, the lesion is most commonly located in the stomach, and the small bowel is an extremely uncommon site. Since Dieulafoy lesion in the small bowel is difficult to access by endoscopy, it seems impossible to diagnose and treat by initial endoscopy unlike the lesions in stomach. We experienced a case of Dieulafoy lesion of jejunum with massive hemorrhage in 54-year-old male. Active jejunal bleeding was shown by computed tomography scan and mesenteric angiography. Partial resection of the jejunum was performed. Final pathologic finding revealed Dieulafoy lesion of the jejunum. (Korean J Gastroenterol 2013;61:279-281)

Key Words: Dieulafoy lesion; Gastrointestinal Hemorrhage; Jejunum

서 론

Dieulafoy 병변은 위장관의 점막하 혈관이 장점막의 결손에 따라 장관 내로 노출되면서 발생하는 병변으로, 이는 위장관출혈의 드문 원인이지만 생명을 위협하는 대량 출혈을 야기할 수 있으므로 중요한 의미를 가진다.^{1,2} Dieulafoy 병변은 전체 위장관 중 대부분 위에서 발견되지만, 일부에서는 식도, 소장, 대장에서도 발견된다.³ 이 중 소장의 Dieulafoy 병변은 매우 드문 것으로 알려져 있고, 국내에서도 소장에서 발견된 Dieulafoy 병변에 대한 증례 보고는 거의 없었다.⁴ 하지만, 소장의 Dieulafoy 병변은 대량 출혈로 인해 치명적인 결과를 초래할 수 있는데도 다른 위장관과 달리 진단 및 치료를 위한 내시경 접근이 어려울 수 있기 때문에 이에 대한 고찰은 중요하다.

저자들은 생명을 위협할 정도의 대량 위장관출혈 환자를

다학제적 접근을 통해 치료한 결과, 조직학적인 확인을 통해 공장의 Dieulafoy 병변이 원인이었음을 밝혀낸 증례가 있어 이를 보고하고자 한다.

증 례

54세 남자 환자가 800 mL 가량의 대량 선홍색 혈변을 주소로 내원하였다. 환자는 고혈압과 고지혈증으로 경구 약제를 복용 중인 것 이외에 기타 과거력은 없었고, 혈변의 기왕력 및 항혈소판제, 항응고제를 복용한 과거력도 없었다.

응급실 내원 당시 의식은 명료하였으나 혈압은 60/40 mmHg로 저혈압 상태이었고, 맥박은 110회/분으로 빈맥 소견을 보였다. 복부는 평탄하고 부드러웠으며, 복부 종괴는 촉진되지 않았다. 혈액 검사에서 헤모글로빈 8.3 g/dL, 혈소판 262,000/mm³를 보여 대량 수액 공급 및 적혈구 수혈을 하며 중환자실로

Received September 14, 2012. Revised October 5, 2012. Accepted October 8, 2012.

© This is an open access article 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.

교신저자: 박병규, 410-719, 고양시 일산동구 일산로 100, 국민건강보험공단 일산병원 내과

Correspondence to: Byung Kyu Park, Department of Internal Medicine, National Health Insurance Corporation Ilsan Hospital, 100 Ilsan-ro, Ilsandong-gu, Goyang 410-719, Korea. Tel: +82-31-900-0645, Fax: +82-31-900-0049, E-mail: bkpark@nhimc.or.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

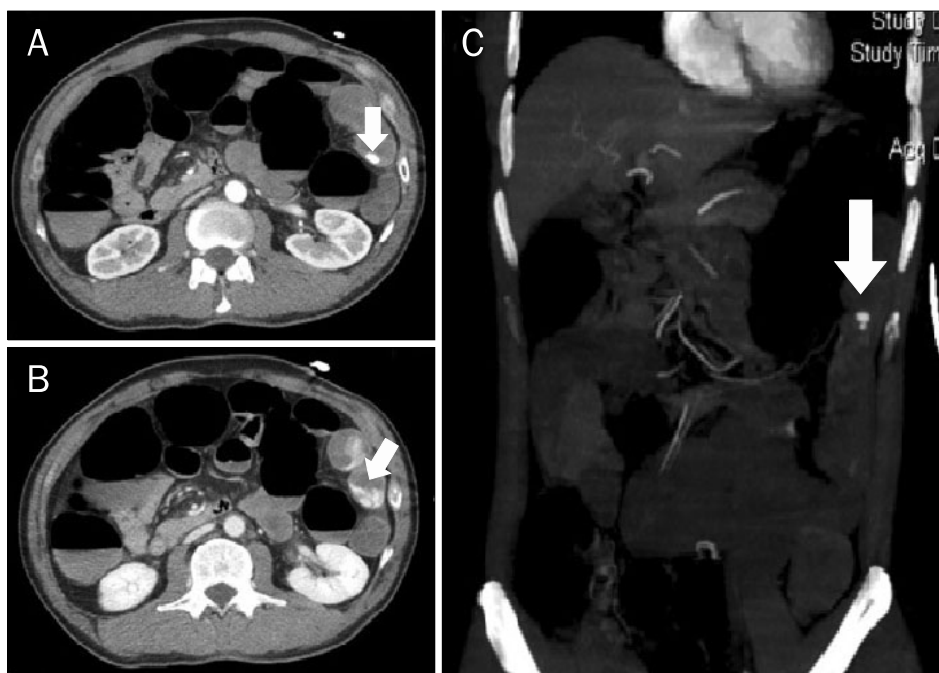


Fig. 1. Axial section of CT scan showing bleeding focus in the jejunum (arrow) at arterial phase (A), and contrast leakage into jejunum (arrow) at venous phase (B). (C) CT angiography showing arterial bleeding on jejunum (arrow).

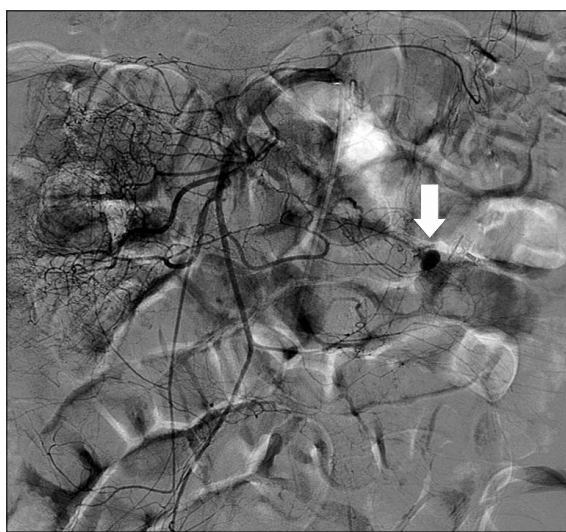


Fig. 2. Mesenteric angiography showed ectatic artery accompanied by contrast extravasation and staining (arrow) at the jejunum level.



Fig. 3. A microscopic finding of resected bowel specimen showed erosive mucosa in contact with a large tortuous submucosal vessel filled with thrombi (H&E, ×125).

입원하였다.

입원 직후 시행한 위 내시경검사에서 특이 소견은 없었고, 결장 내시경검사에서 치핵이 보였으나 출혈 소견은 없었다. S상 결장 상부로부터 대량 출혈이 확인되었으나 시야 확보가 되지 않아 더 이상의 검사 진행이 불가능하였다. 복부 전산화 단층촬영에서 공장의 진행성 출혈이 확인되었고, 기타 복부에 종괴는 보이지 않았다(Fig. 1). 지혈 목적으로 응급 복부동맥 혈관조영술을 시행하여 공장의 출혈 부위를 확인 후 출혈되는 혈관을 지혈하려고 하였으나, 혈관이 가늘어 출혈 혈관으로

선택적인 카테터 삽입이 불가능했으므로 색전술은 시행하지 못하였다(Fig. 2). 환자는 검사 도중 15 units (1 unit=적혈구 400 mL)의 적혈구 수혈을 하였지만 지속적으로 혈변을 보이고 간헐적인 저혈압을 동반한 혈색소 감소가 지속되어 응급으로 개복술을 시행하였다. 수술 중 육안으로 공장 내에 출혈 소견을 보이는 부분이 관찰되어 이를 포함하여 공장을 부분절제하고 단단연결술(end-to-end anastomosis)을 시행하였으며, 수술 6일째 특별한 이상 소견 없이 퇴원하였다.

공장 부분절제술에서 얻은 조직의 병리 소견에서 장점막 및

점막하 혈관의 미란 및 구불상을 보이는 점막하 혈관이 보여 최종적으로 공장의 Dieulafoy 병변으로 진단하였다(Fig. 3).

고 찰

Dieulafoy 병변은 1884년 Gallard에 의해 처음 보고되었으며, 이후에 외과의사 Dieulafoy의 이름을 따서 명명하게 되었다.⁵ Dieulafoy 병변으로 인한 출혈은 급성 위장관출혈의 2-5%를 차지하나 대량 출혈을 동반할 수 있기 때문에 중요하다.

원인으로는 혈관의 노화에 따라 내막밑 섬유화(Subintimal fibrosis)가 진행되면서 내탄력판(internal elastic lamina)이 소실되고, 결국 혈관이 얇아지면서 혈관 굴곡이 증가하게 된다. 결국 탄성이 약한 부위에서 점막결손과 함께 혈관이 갑작스럽게 터지면서 출혈이 동반된다. 이를 조직학적으로 관찰하면 정상점막 주변에 일부 장점막의 결손과 함께 1-3 mm 정도 직경의 점막하 혈관의 노출이 보이며, 이러한 혈관은 대부분 심한 굴곡을 동반한다. 주변에 정맥이 같이 주행하기도 하나 동정맥 기형과 달리 정맥에는 병태 생리학적인 변화는 없는 것이 특징이다.⁶ 일부에서는 Dieulafoy 병변이 젊은 연령에서도 진단되기도 하나 이러한 경우 선천적인 혈관 기형과도 관련있다는 보고가 있다.⁷

Dieulafoy 병변은 위(72%)에서 가장 많이 발견되며 주로 위-식도 접합부에서 6 cm 이내인 상부 1/3 지점에 위치한다. 그 외 십이지장(15%), 식도(8%), 공장(1%), 대장(4%) 등에서도 발견된다.^{7,8} 진단된 대부분의 환자는 대량 출혈로 내원하게 되며, 출혈 부위에 대한 검사법으로 내시경, 전산화단층촬영, 적혈구스캔, 혈관조영술, 복강경 또는 개복술을 이용할 수 있다. 내시경 소견으로는 출혈이 동반될 경우 정상 점막 주변에 국소적인 점막 결손 및 노출된 혈관을 확인할 수 있으나, 활동성 출혈이 없다면 내시경으로 발견하기 어려울 수 있다.

소장의 Dieulafoy 병변을 진단하기 위해서는 일차적으로 다른 위장관 부위에서의 출혈 감별을 위해 위 및 대장내시경을 시행하고, 캡슐내시경이나 이중-풍선 내시경을 시행할 수 있으나, 대량 출혈이 있어 소장내시경이 힘든 상황이나 혈액학적으로 불안정한 경우에 전산화단층촬영 검사나 복부동맥 혈관조영술이 출혈 부위를 확인하는 데 도움이 될 수 있다. 혈관조영술에서는 특징적인 소견은 없으나 회선형이며 확장된 동맥이 출혈부위에서 확인되며 혈액이 유출되는 소견을 보이는 경우가 Dieulafoy 병변을 시사한다.⁹

Dieulafoy 병변에 대한 전통적인 치료는 수술이었으나 최근 내시경 술기가 발전함에 따라 내시경의 접근이 가능할 경우 내시경 지혈술이 주된 치료법이 되었다.⁸ 내시경 지혈술로는 에피네프린나 경화용제 주입술, 전기소작술, 밴드결찰술,

그리고 클립결찰술 등이 있으며, 90% 이상에서 내시경 치료로 효과적인 지혈이 가능하다.^{7,8} 하지만, 소장과 같이 내시경 접근이 어려운 경우나 대량 출혈로 인한 시야 확보 곤란으로 내시경 지혈술이 용이하지 않을 경우 혈관조영술 및 색전술을 통하여 지혈을 시도할 수 있다.⁹ 이러한 경우 Dieulafoy 병변은 점막하 혈관의 결손이기 때문에 혈관 직경이 작아서 혈관 파열이 발생하는 경우가 있고, 또한 넓은 부위의 혈관을 막게 될 경우 장 괴사가 일어날 수 있기 때문에 시술자의 세심한 주의가 필요하다.¹⁰ 또한, 기존의 치료법으로 지혈이 실패한 경우는 수술적 치료가 필요하다. 수술 시에는 출혈된 부위를 확인하고 부분절제술을 하는 것이 원칙이며 출혈부위가 확인되지 않으면 수술 중 내시경검사가 도움이 될 수 있다.

결론적으로 이번 증례를 참고해 볼 때 소장의 Dieulafoy 병변은 매우 드물기는 하나 위장관출혈에서 반드시 고려되어야 하고, 또한 다른 위장관 부위와 달리 내시경을 통한 진단 및 치료에 제한이 있기 때문에 환자의 상황에 따른 다학제적 접근이 중요하다 하겠다.

이에 저자들은 공장의 대량 출혈환자에서 수술 치료 후 Dieulafoy 병변으로 진단한 증례를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Veldhuyzen van Zanten SJ, Bartelsman JF, Schipper ME, Tytgat GN. Recurrent massive haematemesis from Dieulafoy vascular malformations—a review of 101 cases. *Gut* 1986;27:213-222.
2. Schmulewitz N, Baillie J. Dieulafoy lesions: a review of 6 years of experience at a tertiary referral center. *Am J Gastroenterol* 2001;96:1688-1694.
3. Blecker D, Bansal M, Zimmerman RL, et al. Dieulafoy's lesion of the small bowel causing massive gastrointestinal bleeding: two case reports and literature review. *Am J Gastroenterol* 2001;96:902-905.
4. Kim JK, Jo BJ, Lee KM, et al. Dieulafoy's lesion of jejunum: presenting small bowel mass and stricture. *Yonsei Med J* 2005;46:445-447.
5. Chaer RA, Helton WS. Dieulafoy's disease. *J Am Coll Surg* 2003;196:290-296.
6. Juler GL, Labitzke HG, Lamb R, Allen R. The pathogenesis of Dieulafoy's gastric erosion. *Am J Gastroenterol* 1984;79:195-200.
7. Lee YT, Walmsley RS, Leong RW, Sung JJ. Dieulafoy's lesion. *Gastrointest Endosc* 2003;58:236-243.
8. Baxter M, Aly EH. Dieulafoy's lesion: current trends in diagnosis and management. *Ann R Coll Surg Engl* 2010;92:548-554.
9. Durham JD, Kumpe DA, Rothbarth LJ, Van Stiegmann G. Dieulafoy disease: arteriographic findings and treatment. *Radiology* 1990;174:937-941.
10. Defreyne L, Vanlangenhove P, De Vos M, et al. Embolization as a first approach with endoscopically unmanageable acute non-variceal gastrointestinal hemorrhage. *Radiology* 2001;218:739-748.