

CASE REPORT

복부동맥류 치료를 위하여 삽입한 혈관 내 스텐트로 인하여 유발된 대동맥 장관루의 혈관조영색전술 치료 1예

고광훈, 김설영, 정일순, 김규섭, 문희석, 성재규, 정현용

충남대학교 의학전문대학원 내과학교실

A Case of Angiographic Embolization of Aortoenteric Fistula Caused by Endovascular Stent Grafting for an Abdominal Aortic Aneurysm

Kwang Hun Ko, Seul Young Kim, Il Soon Jung, Kyu Seop Kim, Hee Seok Moon, Jae Kyu Seong and Hyun Yong Jeong

Department of Internal Medicine, Chungnam National University School of Medicine, Daejeon, Korea

Aortoenteric fistula (AEF) developed after treatment for an abdominal aortic aneurysm (AAA) is a rare but usually fatal complication. We report a rare case of AEF bleeding after endovascular stent grafting for AAA which was managed angiographically. An 81-year-old man presented with hematochezia and acute abdominal pain for 1 day ago. Four years ago, an aortic stent was implanted in the infrarenal aorta for AAA. Endoscopies were performed to evaluate the hematochezia. Evidence of gastrointestinal bleeding was observed, but a clear bleeding point was not detected on upper endoscopy and colonoscopy. Contrast-enhanced computed tomography performed subsequently showed that the bleeding point was located in the fourth portion of the duodenum as an AEF caused by an inflammatory process in the stent-graft. Intra-arterial angiography showed a massive contrast leakage into the bowel via a small fistula from around the aortic stent graft site. Embolization was successfully performed by injecting a mixture of glue and lipiodol into the AEF tract. The patient was discharged with no evidence of gastrointestinal bleeding after the embolization. (*Korean J Gastroenterol* 2013;61:230-233)

Key Words: Aortoenteric fistula; Abdominal aortic aneurysm; Endovascular stent

서 론

대동맥 장관루(aortoenteric fistula)는 상부위장관 출혈의 드문 원인이지만 조기에 발견되지 않고 진단이 늦어지거나 치료받지 않을 경우 높은 사망률을 동반하는 치명적인 질환이다. 대동맥 장관루는 원인에 따라 원발성, 이차성으로 나눌 수 있는데 이차성의 발생 빈도는 0.5-2.4%로 주로 인공 삽입물을 이용한 동맥재건술 후에 발생하며, 원발성은 부검 연구에 따르면 0.04-0.07%의 빈도로 발생하고 복부대동맥류가 가장 흔한 원인으로 알려져 있다.¹⁻³ 이에 저자들은 혈변을 주소로 내원하여 시행한 복부 컴퓨터단층촬영과 혈관조영술에서

대동맥 스텐트 삽입 후 발생한 대동맥 장관루로 진단되어 색전술을 시행한 후 호전된 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

81세 남자가 하루 전부터 시작된 혈변을 주소로 응급실에 내원하였다. 과거력으로 약 4년 전 복부대동맥류로 대동맥 스텐트를 삽입한 기왕력이 있고 항혈전제를 복용 중이며 그 외 특이 병력은 없었다. 내원 당시 혈압 100/50 mmHg, 맥박 95회/분, 체온 37.0°C, 호흡수 20회/분이었다. 신체검사에서

Received May 25, 2012. Revised September 12, 2012. Accepted September 12, 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: 문희석, 301-721, 대전시 중구 문화로 282, 충남대학교 의학전문대학원 내과학교실

Correspondence to: Hee Seok Moon, Department of Internal Medicine, Chungnam National University School of Medicine, 33 Munhwa-ro, Jung-gu, Daejeon 301-721, Korea. Tel: +82-42-280-7143, Fax: +82-42-257-5753, E-mail: mhs1357@hanmail.net

Financial support: None. Conflict of interest: None.

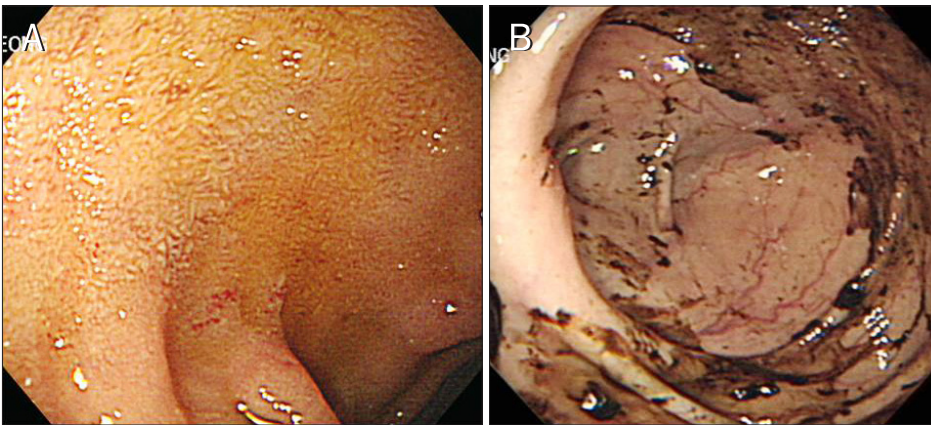


Fig. 1. (A) Duodenoscopy showing no evidence of a bleeding focus. (B) Melena was detected by colonoscopy, suggesting bleeding in the upper intestinal tract.

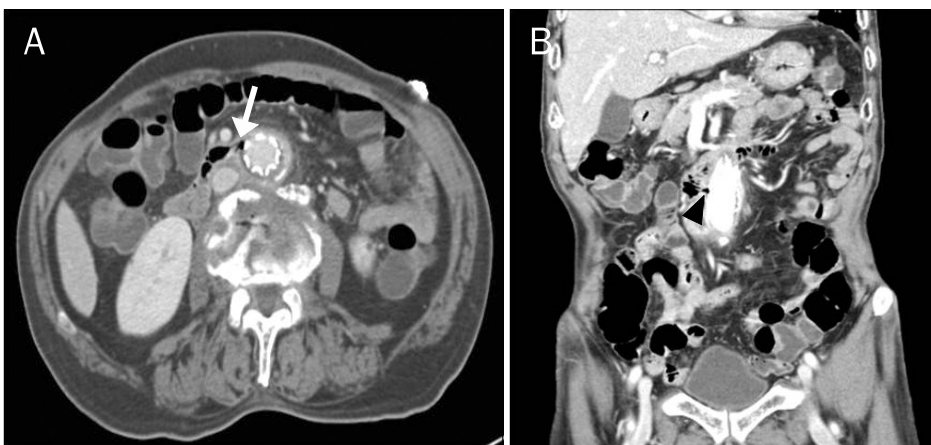


Fig. 2. (A) Computed tomography scan showing a bleeding point in the fourth portion of the duodenum, suggesting an aortoenteric fistula (arrow). (B) Computed tomography scan showing a small foci of air around the frame of the device (arrow head).

복부는 부드럽고 평탄하였으며 덩어리는 촉지되지 않았다. 말초혈액검사에서 백혈구 $13,200/\text{mm}^3$, 혈색소 6.9 g/dL , 혈소판 $187,000/\text{mm}^3$ 이었고 혈청생화학검사에서 AST 30 IU/L , ALT 14 IU/L , 총빌리루빈 0.6 mg/dL , 총단백 6.5 g/dL , 알부민 3.4 g/dL , 혈액요소질소 33.6 mg/dL , 크레아티닌 0.97 mg/dL , Na 133 mEq/L , K 4.1 mEq/L , Cl 100 mEq/L 이었다. 위 세척검사에서 출혈의 흔적은 관찰되지 않았고 직장수지검사에서 혈변이 묻어 나왔으나 종물 등은 만져지지 않았다. 상부위장관 내시경검사에서 식도, 위 그리고 십이지장에 출혈 소견은 없었고 대장 내시경검사에서 맹장과 회맹판에 흑색변이 부착된 위장관 출혈의 흔적이 관찰되었으나 출혈의 위치는 파악할 수 없었다(Fig. 1A, B). 복부 컴퓨터단층촬영에서 십이지장 제4부에 대동맥의 스텐트와 연결된 대동맥 장관루가 관찰되어(Fig. 2A, B), 대퇴 동맥을 통해 5-F pigtail catheter (William Cook Europe, Bjæverskov, Denmark)를 삽입하여 동맥혈관조영술을 시행하였다. 조영술에서 대동맥 스텐트와 십이지장 사이에 가성 동맥류를 포함한 대동맥 장관루가 관찰되었으며 누공을 통한 위장관으로의 조영제 누출이 관찰되었다(Fig. 3). 대동맥 장관루로 인한 위장관 출혈 진단 하에

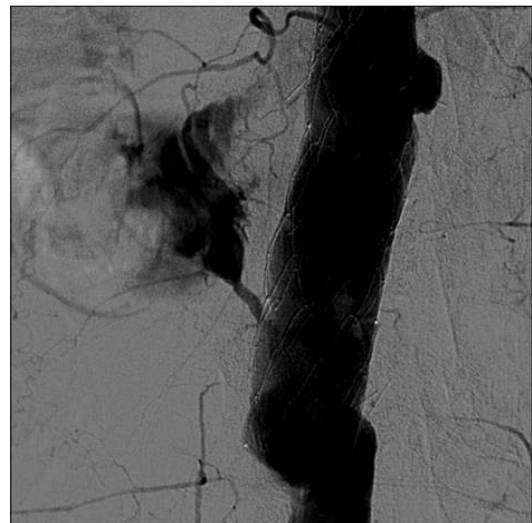


Fig. 3. Angiography showing contrast leakage into the bowel via the fistula tract.

대동맥 장관루의 가성 동맥류에 대하여 직경 2 mm , 길이 50 mm microembolization coil (MWCE-18-5-2; William Cook Europe)을 이용한 색전술을 시행하였고(Fig. 4), 대동맥 장관

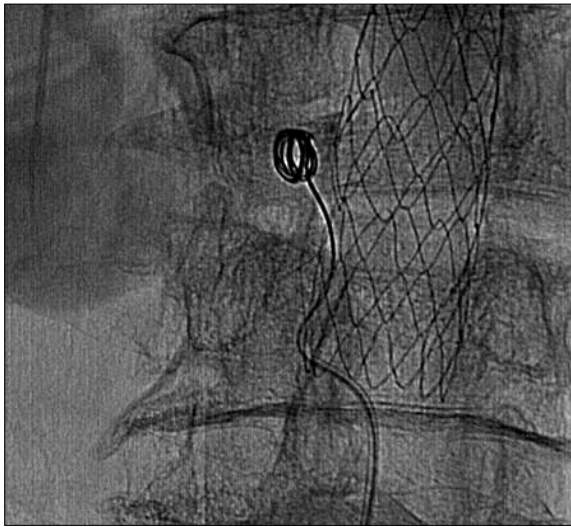


Fig. 4. Microcoils were inserted into sac-like dilatation of the fistula tract.

루는 microcatheter를 삽입하여 glue (Histoacryl[®]; B. Braun Melsungen AG, Melsungen, Germany) 2 mL와 lipiodol 1 mL의 비율로 혼합한 물질을 이용한 색전술을 시행하였다. 색전술 시행 후 누공을 통한 조영제 누출은 관찰되지 않았다 (Fig. 5).

환자는 대동맥 스텐트 위치와 위장관 사이의 대동맥 장관루를 통한 위장관 출혈로 진단되어 색전술을 시행한 후 안정되었고 더 이상의 위장관 출혈이 없어 퇴원하였다. 복통 및 위장관 출혈의 증상 없이 퇴원 2개월 후까지 외래 추적관찰이 되었으나, 이후 외래에 내원하지 않아 영상의학적 추적관찰은 되지 않았다.

고 찰

1953년에 Brock⁴이 대동맥 동종이식 수술 후 발생한 대동맥-십이지장루를 처음 발표하였으며 1956년에 Birch 등⁵은 인조혈관으로 대동맥을 치환한 후 발생한 대동맥 장관루를 처음 보고하였다. 그 후 인조혈관을 이용한 대동맥 치환술이 증가하면서 이차적인 대동맥 장관루의 보고도 증가하였다. 대동맥 장관루는 대동맥재건술 후에 이차적으로 발생하는 경우가 대부분이며, 원발성의 경우 죽상경화성 대동맥류가 흔한 원인이다.³ 이외에도 외상성, 진균성 대동맥류가 원인이고, 소화관 내 이물, 복부 방사선치료, 원발성 췌장암, 전이성 암, 담석증 등도 드문 원인으로 알려져 있다.⁶⁻⁸ 대동맥 장관루는 대동맥과 인접한 위장관의 어느 부위라도 발생할 수 있지만, 가장 많은 곳은 십이지장의 제3부이다. 이 부위는 후복막강에 고정되어 있고 대동맥의 바로 앞에 위치하며, 지속적으로 대동맥



Fig. 5. Embolization was performed by injecting a mixture of glue and lipiodol. After the procedure there was no longer any leakage of contrast through the fistula tract.

의 박동이 전달되기 때문이다.⁹ 그 다음으로 많이 발생하는 곳은 공장, 회장, 대장, 식도, 위 순이다.¹⁰ 이번 증례에서는 대동맥 스텐트 삽입 후 대동맥과 십이지장의 제4부에서 이차성 대동맥 장관루가 발생하고 출혈이 나타난 것으로 진단하였다.

대동맥-장관루의 잘 알려진 전통적 세 가지 징후로는 위장관 출혈, 복통, 박동성 복부종괴가 있으나 이런 징후들이 함께 동반되는 경우는 25% 미만으로 흔하지 않다.¹¹ 대동맥 장관루의 경우 60-70%에서 위장관 대량 출혈이 있으며 25% 정도에서는 출혈이 만성적이거나 간헐적이다.¹² 상부위장관 대량 출혈이 나타나기 전 소량의 전구 출혈(herald bleeding)은 이 질환의 특징적 소견으로 저절로 멈추는데, 이는 아마도 갑작스런 팽창으로 인한 장벽 근육층의 수축 때문으로 보인다. 출혈은 저혈압이나 혈전이 생성되면 멈추는데 이후에 지나친 수액보충이나 내시경으로 인해 치명적으로 악화될 수 있다.⁹

컴퓨터단층촬영이 소화기 내시경검사나 혈관조영술에 비해 덜 침습적이고, 사용하기 용이하고 신속하여 현재 초기 진단검사로 추천되고 있다.¹³ 컴퓨터단층촬영의 진단적 소견은 대동맥 안에 공기음영이 있고 인접한 위장관 내에 방사선 조영제가 누출되는 것이다. 대동맥류에 인접한 장관 벽이 두꺼워져 있거나 대동맥류 벽이나 주위 지방층이 소실된 것도 간접적인 소견이다.¹⁴ 드물게 누공 자체가 관찰되는 경우도 있는데, 이번 증례에서도 컴퓨터단층촬영에서 누공이 관찰되었으며 미세 공기음영 역시 누공과 연결된 대동맥 벽에서 관찰되었다. 상부위장관 내시경은 활력징후가 불안정한 환자에서 시행하는 것은 위험할 수 있고, 위장관 내 대량의 혈괴가 존재할 경우 관찰에 한계가 있으므로 검사의 정확도가 컴퓨터단층촬영

정보보다 낮을 것으로 생각된다. 그러나 상부위장관 출혈의 가장 흔한 원인은 소화성 궤양 혹은 식도 정맥류 출혈과 같은 원인에 의한 경우가 많으므로 출혈의 흔한 원인들을 확인하는 목적에 있어서는 상부위장관 내시경이 유용하다고 알려져 있다.¹⁵ 또한 의심하지 않을 경우 진단이 매우 어려워지므로 대동맥 장관루는 상부위장관 출혈의 드문 원인으로 고려해야 할 것이다.

대동맥 장관루에 따른 위장관 출혈의 치료는 대량 출혈 전에 조기 진단을 하여 가급적 빠른 개복술을 통해 출혈의 방지 및 장관 내 물질의 대동맥으로의 유입을 방지하고 동맥 재건술을 시행한 후 합병증을 예방하는 것이다.¹⁶ 이번 증례에서는 기존의 개복술과는 달리 혈관조영술을 통한 색전술로 대동맥 장관루를 통한 출혈을 치료하였다.

혈관조영술을 통한 색전술의 재료로는 이번 증례에서 사용된 embolic coil 이외에도 glue, detachable 풍선, 혈관 plug를 사용할 수 있으며, 단독 혹은 서로를 조합하여 사용할 수 있다. 대량의 출혈과 저혈압성 쇼크, 대동맥 장관루의 크기가 클 경우에는 혈관조영술을 통한 색전술이 효과적이지 않을 수 있으며, 개복술 전까지 일시적인 출혈의 치료를 위해 상완동맥을 통하여 하행 흉부대동맥에 풍선 폐색 카테터를 삽입해 볼 수 있으나, 치료에 성공하였다는 보고는 없는 실정이다.^{17,18}

혈관조영술을 통한 치료의 제한점으로는 embolic coil의 이탈과 신장과 다른 장기로의 혈전물질 이동, 장관루를 통한 감염의 빈번한 재발과 감염 재발 시 출혈이 다시 재발할 수 있다는 점, 누공이 큰 경우에는 완전한 혈전형성이 어렵다는 점 등이 있다.^{19,20}

결론으로 대동맥 장관루는 의심하지 않으면 진단과 치료가 힘들다. 상부위장관 출혈 환자에서 뚜렷한 출혈 부위가 없는 경우, 드물지만 상부위장관 출혈의 원인으로 대동맥 장관루를 고려하는 것이 임상적으로 중요하며, 저자들은 대동맥 스텐트 삽입 후 발생한 대동맥 장관루를 혈관조영술을 이용하여 진단 후 수술적 치료를 시행하지 않고 혈관색전술로 호전시킨 최초의 증례를 경험하였기에 보고한다.

REFERENCES

1. Flye MW, Thompson WM. Aortic graft-enteric and paraprosthetic-enteric fistulas. *Am J Surg* 1983;146:183-187.
2. Voorhoeve R, Moll FL, de Letter JA, Bast TJ, Wester JP, Slee PH. Primary aortoenteric fistula: report of eight new cases and review of the literature. *Ann Vasc Surg* 1996;10:40-48.
3. Reynolds JV, Galloway JM. Primary aortoduodenal fistula: a case report and review of the literature. *Ir J Med Sci* 1991;160:381-384.
4. Brock RC. Aortic homografting; a report of six successful cases. *Guys Hosp Rep* 1953;102:204-228.
5. Birch L, Cardwell ES, Claytor H, Zimmerman SL. Suture-line rupture of a nylon aortic bifurcation graft into the small bowel. *AMA Arch Surg* 1956;73:947-950.
6. Yu SB, Park SC, Moon IS, Koh YB. Primary aorto-duodenal fistula in salmonella mycotic aortic aneurysm: a case report. *J Korean Soc Vasc Surg* 2003;19:79-82.
7. Kalman DR, Barnard GF, Massimi GJ, Swanson RS. Primary aortoduodenal fistula after radiotherapy. *Am J Gastroenterol* 1995;90:1148-1150.
8. Broadbent NR, Taylor DE. Gallstone erosion of the aorta. *Aust N Z J Surg* 1975;45:207-208.
9. Saers SJ, Scheltinga MR. Primary aortoenteric fistula. *Br J Surg* 2005;92:143-152.
10. Berry SM, Fischer JE. Classification and pathophysiology of enterocutaneous fistulas. *Surg Clin North Am* 1996;76:1009-1018.
11. Sweeney MS, Gadacz TR. Primary aortoduodenal fistula: manifestation, diagnosis, and treatment. *Surgery* 1984;96:492-497.
12. Elliott JP Jr, Smith RF, Szilagyi DE. Proceedings: Aortoenteric and paraprosthetic-enteric fistulas. Problems of diagnosis and management. *Arch Surg* 1974;108:479-490.
13. Korkut AK, Arpinar E, Yasar T, Guney D. Primary aortoduodenal fistula complicated by abdominal aortic aneurysm. *J Cardiovasc Surg (Torino)* 2000;41:113-115.
14. Mylona S, Ntai S, Pomoni M, Kokkinaki A, Lepida N, Thanos L. Aorto-enteric fistula: CT findings. *Abdom Imaging* 2007;32:393-397.
15. Brand EJ, Sivak MV Jr, Sullivan BH Jr. Aortoduodenal fistula: endoscopic diagnosis. *Dig Dis Sci* 1979;24:940-944.
16. Kim JY, Kim YW, Kim CJ, Lim HI, Kim DI, Huh S. Successful surgical treatment of aortoenteric fistula. *J Korean Med Sci* 2007;22:846-850.
17. Loftus IM, Thompson MM, Fishwick G, et al. Technique for rapid control of bleeding from an aortoenteric fistula. *Br J Surg* 1997;84:1114.
18. Karkos CD, Bruce IA, Lambert ME. Use of the intra-aortic balloon pump to arrest gastrointestinal bleeding. *Ann Emerg Med* 2001;38:328-331.
19. Finch L, Heathcock RB, Quigley T, et al. Emergent treatment of a primary aortoenteric fistula with N-butyl 2-cyanoacrylate and endovascular stent. *J Vasc Interv Radiol* 2002; 13:841-843.
20. Cekirge S, Oguzkurt L, Saatci I, et al. Embolization of a high-output post-nephrectomy aortocaval fistula with Gianturco coils and cyanoacrylate. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1996;19:56-58.