

CASE REPORT

외상성 하장간막 동정맥루 1예

전동옥, 박주상, 김지은, 이상진, 조효진, 임성규, 김일동¹, 한은미²
분당제생병원 내과, 외과¹, 진단병리과²

A Case of Traumatic Inferior Mesenteric Arteriovenous Fistula

Dong Ok Jeon, Ju Sang Park, Ji Eun Kim, Sang Jin Lee, Hyo Jin Cho, Sung Gyu Im, Il Dong Kim¹ and Eun Mee Han²
Departments of Internal Medicine, Surgery¹ and Pathology², Bundang Jesaeng General Hospital, Seongnam, Korea

Inferior mesenteric arteriovenous fistula is rare and may be congenital or acquired. Affected patients present with abdominal pain, mass, or manifestations of portal hypertension and bowel ischemia. Until now, inferior mesenteric arteriovenous fistula due to trauma has not been reported. Herein, we report a case of a 53-year-old woman who had inferior mesenteric arteriovenous fistula considered to have originated from remote blunt trauma that was successfully treated by surgical resection of only the arteriovenous fistula without colectomy. To our knowledge, this is the first case of traumatic inferior mesenteric arteriovenous fistula. (*Korean J Gastroenterol* 2013;62:296-300)

Key Words: Inferior mesenteric artery; Arteriovenous fistula; Abdominal injuries

서 론

동정맥루는 모세관을 통하지 않고 동맥과 정맥이 직접 이 상단락한 것을 말하며, 선천성 또는 후천성 원인에 의한 다. 선천성 동정맥루는 배아혈관이 동맥과 정맥으로 분화되지 않고 지속된 결과이다.¹ 후천성 동정맥루는 총상이나 자상에 의한 관통상, 이전부터 존재하던 동맥류의 근처 정맥 안으로 파열, 동맥도관법이나 외과적 처치의 합병증에 의한 흔하지 않은 후유증이다.¹ 문헌 고찰 결과 내장 동정맥루는 현재까지 약 200예가 보고되었는데, 그 중 대부분은 간혈관, 비장혈관, 상장간막혈관 사이에서 발생되었으며 하장간막 동정맥루는 단지 18예만 보고되었다.¹⁻¹⁸ 저자들은 최근 좌하복부 통증 및 종괴 소견으로 내원한 53세 여자 환자에서 과거 복부외상과 연관된 것으로 추정되는 하장간막 동정맥루와 하장간막 정맥 폐색을 진단하고 장절제 없이 동정맥루 혈관절제술만으로 성공적으로 치료하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

이 증례는 외상에 의한 후천성 하장간막 동정맥루의 최초 보고이다.

증 례

53세 여자 환자가 37년 전 타인에게 좌상복부를 심하게 구타당한 이후 1-2년 간격으로 발생해오던 좌하복부 통증의 빈도가 최근 잦아지다가 3일 전부터 악화되고 종물감까지 있어 본원에 내원하였다. 과거력에서 3년 전부터 고혈압으로 약물 복용 중이었고 그 이외에 당뇨, 폐결핵, 간염, 수술력 등은 없었다. 외상에 대한 기억은 환자의 자발적인 기억이었다. 계통적 문진에서 복통 외에 오심, 구토, 설사, 위장관 출혈 등의 증상은 없었으며, 활력 징후는 혈압 131/79 mmHg, 맥박수 95회/분, 호흡수 18회/분, 체온 36.6°C였다. 환자는 급성 병색을 보였고, 신체검사서 결막은 창백해 보이지 않았고 공막에 황달은 없었으며 심음과 폐음은 정상이었다. 복부 진찰검

Received March 27, 2013. Revised May 9, 2013. Accepted May 10, 2013.

© 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: 박주상, 463-774, 성남시 분당구 서현로 180번길 20 분당제생병원 내과

Correspondence to: Ju Sang Park, Department of Internal Medicine, Bundang Jesaeng General Hospital, 20 Seohyeon-ro 180beon-gil, Bundang-gu, Seongnam 463-774, Korea. Tel: +82-31-779-0209, Fax: +82-31-779-0897, E-mail: parkjs@dmc.or.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

사에서 좌하복부에 압통과 수축기-확장기 잡음이 들리는 부드럽고 고정되지 않은 10 cm 크기의 종괴가 촉지되었고 그 이외에 복부는 부드럽고 경도의 복부팽만이 있었으나 간비대 또는 비장종대 등의 소견은 관찰되지 않았다.

일반혈액검사서 백혈구 10,400/mm³ (호중구 67.4%), 혈색소 13 g/dL, 혈소판 646,000/mm³였다. 생화학검사서 AST 26 IU/L, ALT 24 IU/L, 총 빌리루빈 0.45 mg/dL, 혈당 79 mg/dL, 총 콜레스테롤 165 mg/dL, 총 단백 7.7 g/dL, 알부민 4.2 g/dL, 혈중요소질소 17.7 mg/dL, 크레아티닌 1.19 mg/dL, CRP 3.77 mg/dL, 혈액응고검사는 PT/aPTT 11.8초/25.4초였다. 혈청 전해질, 요검사, 심전도, 흉부 단순사진은 모두 정상이었다. 응고항진성을 감별하기 위해 측정한 혈액 항응고인자 검사서 protein C 115%, protein S 97%, antithrombin III는 101.7%로 모두 정상 범위였고, 루푸스 항응고인자, 항인지질항체, 그리고 항핵체는 모두 음성이었다.

복부 전산화단층촬영에서 하장간막 동맥과 하장간막 정맥의 경계가 불분명하고 종괴처럼 보이는 고밀도음영의 장간막

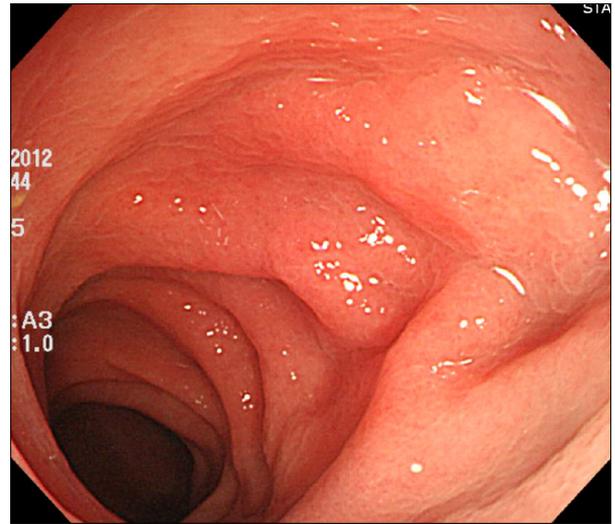


Fig. 2. Colonoscopic findings. Diffuse mucosal edema with mild hyperemia is noted from mid rectum up to mid descending colon.

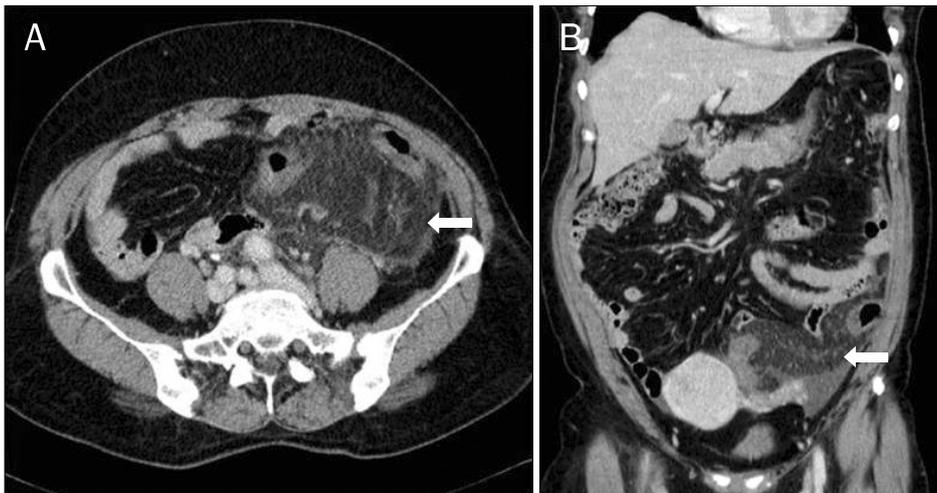


Fig. 1. (A, B) Abdominal and pelvic CT. Mesenteric thickening producing a mass-like appearance is noted (white arrows).

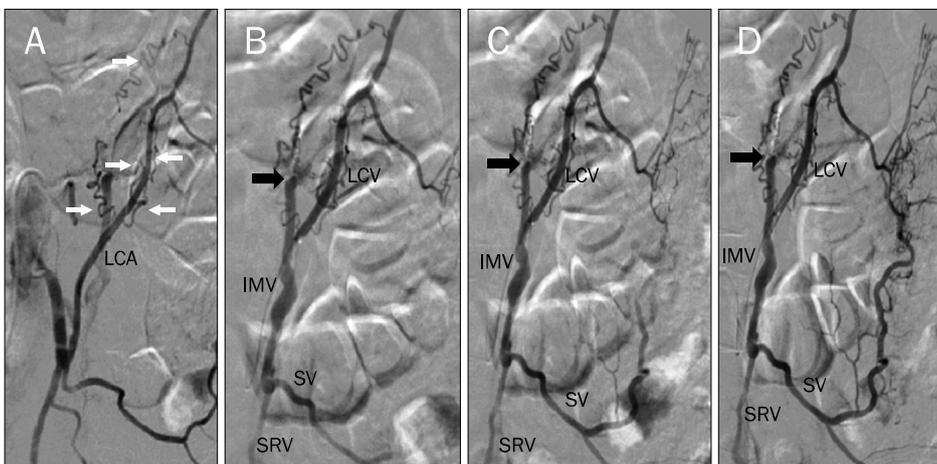


Fig. 3. Inferior mesenteric arteriogram. (A) Arterial phase shows multiple (about five) fine fistulous communications (white arrows) between left colic artery (LCA) proximal descending colon branch and inferior mesenteric vein (IMV). (B) Late arterial phase shows early opacification of IMV with multifocal narrowing (black arrow). (C, D) Venous phase shows retrograde filling of left colic vein (LCV), sigmoidal vein (SV), and superior rectal vein (SRV) and complete occlusion at proximal portion of IMV (black arrows).

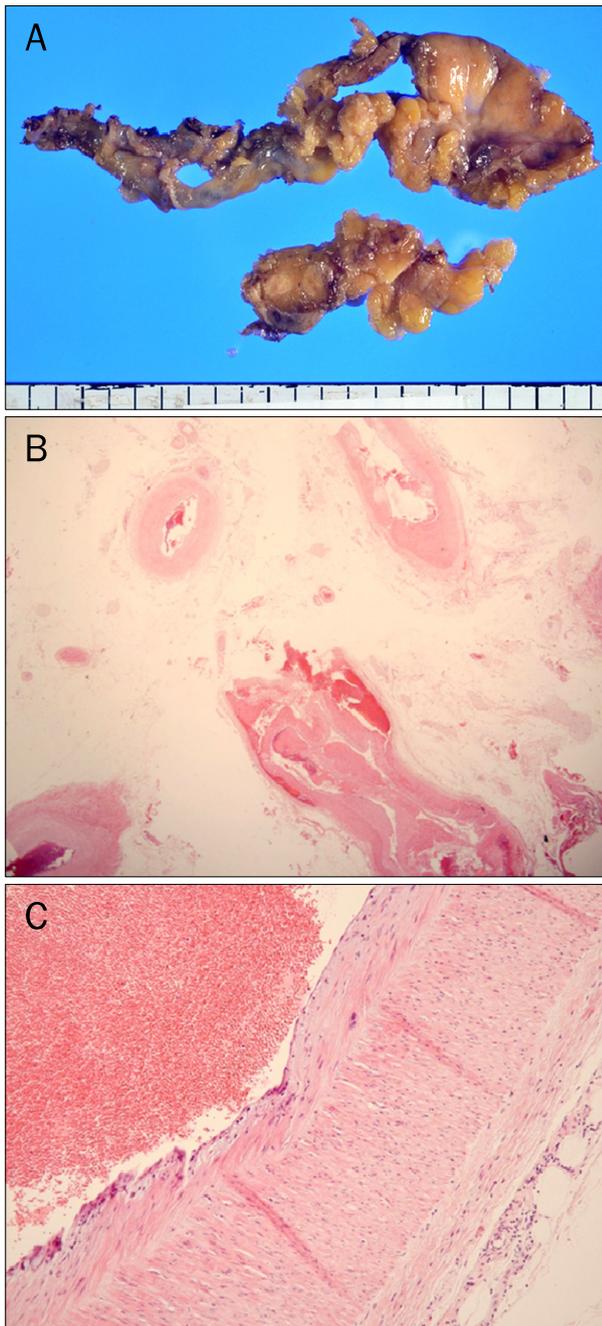


Fig. 4. Gross finding. (A) Several segments of blood vessels with attached fat tissue are noted (measuring up to 11×2 cm). Microscopic pathologic findings (B, C) show thick walled vein with congestion (H&E stain; B, ×10; C, ×200).

이 보였으며, 구불결장과 하행결장벽의 비후와 조영증강 감소가 있었다(Fig. 1). 복수, 비장비대, 식도와 위정맥류는 관찰되지 않았다. 대장내시경에서 하행결장부위 직장 중간부위까지 정도의 충혈을 동반한 전반적인 점막 울혈과 장벽 부종 소견 이외에 장폐색이나 종양은 관찰되지 않았다(Fig. 2).

하장간막 동맥 혈관조영검사서 좌결장동맥의 근위부 하

행결장까지 근위부위에서 기시하는 여러 개의 가는 구불구불한 동맥에 의하여 하장간막 정맥의 근위부 부위가 보이는 동정맥루가 보였고 이로 인해 좌결장정맥, 구불결장정맥, 상직장정맥이 원위부위까지 역충전되는 소견이 관찰되었다. 하장간막 정맥의 근위부는 완전폐색을 보였고 하장간막 정맥은 전반적으로 다발성 협착소견을 보였다(Fig. 3).

하장간막 동정맥루가 여러 개로 구불구불하고 가늘게 연결되어 미세도관에 의한 선택도자가 불가능하였기 때문에 저자들은 경피적 동맥색전술보다는 외과적 절제술을 시행하기로 결정하였다. 수술 소견에서 결장의 모서리 혈관(marginal vessel)들이 보존되어있고 장허혈이 보이지 않았으며 하장간막 정맥의 섬유성 허탈에 의한 울혈성 결장병증(congestive colonopathy) 소견만을 보여 장절제 없이 동정맥루 혈관절제술을 시행하였다.

육안소견에서 절제된 조직은 11×2 cm 크기로 울혈된 혈관이었고 병리소견에서 혈관염은 보이지 않았으며, 혈관구조가 유지되는 가운데 두꺼워진 정맥벽과 정맥에 핏덩이들이 차 있는 울혈소견이 보였다(Fig. 4). 수술 후 경과가 양호하여 환자는 수술 후 7일째 퇴원하였고 7일 후 외래 방문 시까지 출혈이나 복통은 없었으며 좌하복부 종괴 크기가 감소하고 수술 상처가 치유된 모습을 보였다.

고찰

하장간막 동정맥루는 드문 내장 동정맥루이며 현재까지 18예 정도의 문헌만 보고되어 있다(Table 1).^{1-10,12-18} 이 중 9예는 선천성 원인으로,^{1,2,7-10,13,16,18} 나머지 9예는 대장절제술 후 후기합병증으로 발생하였다.^{3-6,12,14,15,17} 내장 동정맥루가 20여 년 후 지연 진단된 보고가 있기는 하지만 손상 수술에서 수주 내에 보통 진단된다.² 간헐적인 복통으로 인해 수십 년이나 진단이 늦어지기는 했지만 이번 증례의 동정맥루는 복부 수술을 받은 적이 없고 37년 전 복부가격을 당한 이후부터 손상부위 주위에 증상이 있었던 점을 미루어 보아 복부외상과 연관되어 있을 것으로 보인다.

내장 동정맥루의 주요 임상징후는 복통,^{1,3-7,10,14,17,18} 종괴,^{12,13,15,16} 또는 잡음¹⁶이며 내장 동정맥루의 경과에서 문맥고혈압과 장허혈의 중대한 징후가 있을 수 있다. 문맥고혈압에 의한 증상으로 비특이적인 복통, 복수, 식도 정맥류 출혈, 비장비대와 장허혈에 의한 증상으로 장양기나(abdominal angina), 설사, 흡수장애, 그리고 하부위장관 출혈이 있을 수 있다.^{1,3}

문맥고혈압은 내장동정맥루 환자의 약 50%에서 관찰되고,¹ 이는 문맥계로의 혈류량 증가 및 간 혈관저항성 증가에 의해서 발생한다.⁸ 문맥고혈압은 간-문맥 또는 비장 동정맥루

Table 1. Characteristics of the 19 Cases of Inferior Mesenteric Arteriovenous Fistula

| Author | Age (yr)/sex | Etiology | Interval to diagnosis (yr) | Symptoms | Portal hypertension/ bowel ischemia | Treatment |
|--------------------------------|--------------|--------------------------------|----------------------------|--|--|--|
| Van Way et al. ¹ | 72/F | Congenital | NS | Abdominal pain | +/- | Left colectomy |
| Baranda et al. ² | 69/F | Congenital | NS | Diarrhea | +/- | Left colectomy |
| Capron et al. ³ | 60/F | Postoperative | 11 | Abdominal pain | -/+ | Intraarterial embolization |
| Fabre et al. ⁴ | NS/M | Postoperative | 20 | Abdominal pain | +/+ | Intraarterial embolization |
| Hirner et al. ⁵ | 43/F | Postoperative | 15 | Abdominal pain | +/- | Surgical excision |
| Houdard et al. ⁶ | 50/F | Postoperative | 3 | Abdominal pain Diarrhea | -/+ | Left colectomy |
| Kim et al. ⁷ | 46/M | Congenital | NS | Abdominal pain Diarrhea | -/+ | Left colectomy |
| Manns et al. ⁸ | 33/M | Congenital | NS | Diarrhea | +/- | Left colectomy |
| Matsui et al. ⁹ | 64/M | Congenital | NS | Diarrhea | -/- | Intraarterial embolization |
| Metcalfe et al. ¹⁰ | 50/M | Congenital | NS | Abdominal pain Diarrhea | -/+ | Left colectomy |
| Okada et al. ¹² | 69/F | Postoperative | 8 | Abdominal mass | +/- | Left colectomy |
| Oyama et al. ¹³ | 70/M | Congenital | NS | Abdominal mass | -/- | Left colectomy |
| Peer et al. ¹⁴ | 63/M | Postoperative | 0.5 | Abdominal pain Diarrhea | +/- | Left colectomy |
| Pietri et al. ¹⁵ | 72/M 60/F | Postoperative Postoperative | NS NS | Abdominal mass Abdominal mass Diarrhea | +/+ -/- | Left colectomy Intraarterial embolization |
| Sabatier et al. ¹⁶ | 22/M | Congenital | NS | Abdominal mass | -/- | NS |
| Tomomi et al. ¹⁷ | 74/M | Postoperative | 15 | Abdominal pain | +/- | Surgical excision |
| Türkvatan et al. ¹⁸ | 83/M | Congenital | NS | Abdominal pain Diarrhea | -/+ | Left colectomy |
| Present case | 53/F | Traumatic | 37 | Abdominal pain Abdominal mass | -/- | Surgical excision |

M, male; F, female; NS, not specified.

에서 더 흔하게 관찰된다.¹⁵ 현재까지 보고된 하장간막 동정맥루 환자 18명 중 9명이 문맥고혈압 증상 또는 징후를 보였으며(Table 1), 문맥고혈압은 동정맥루 치료 후 일반적으로 감소되었다. 이번 증례에서는 위장관내시경을 시행하지 않아 위식도정맥류는 확인할 수 없었지만 복부 전산화단층촬영, 혈관조영검사에서 정맥류가 관찰되지 않았고 위장관 출혈, 복수, 비장비대, 혈소판 감소증과 같은 문맥고혈압 증상이나 징후는 관찰되지 않았다.

장허혈은 내장 동정맥루의 또 하나의 가능한 합병증으로 현재까지 보고된 하장간막 동정맥루 환자 18명 중 7명이 장허혈 증상 또는 징후를 보였다(Table 1). 하장간막 동정맥루는 비폐색성 허혈성 대장염의 유발인자일 수 있다.^{3,4,6,7,10,15,18} 이는 동정맥루 원위부의 동맥혈류의 감소와 정맥압 증가와 연관된다.^{3,19} 이번 증례에서는 울혈성 결장병증 이외에 장허혈 증상은 보이지 않았다.

하장간막 동정맥루 치료방법은 장절제를 동반 또는 동반하지 않는 수술적 교정이며,¹² 최근에는 영양동맥의 경피적 혈관내 색전술이 수술의 대안으로 등장하면서 치료빈도가 점차 증가하고 있다.^{3,4,9,15} 하지만 큰 혈관에서 발생한 동정맥루에서는 광범위한 동맥색전 및 허혈의 위험성 때문에 동맥색전술은

시행할 수 없다. 동맥정류 혈류량이 많거나 지름이 8 mm 이상인 경우 금속코일이 문맥계로 이동할 수 있다.²⁰

하장간막 동정맥루는 흔하지 않아 간과하기 쉬우나, 환자가 문맥고혈압 및 비폐색성 허혈성 장염과 같은 증상 또는 징후를 보이거나 과거 복부 외상이나 수술 병력이 있는 환자에서 복통을 호소하면 합병증이 발생하기 전이라도 의심하는 것이 필요할 것으로 생각된다.

현재까지 보고된 후천성 하장간막 동정맥루는 9예로 모두 대장절제 후 발생한 후기합병증이 원인이었고 외상으로 발생한 예는 없었다. 저자 등은 복부둔상으로 인해 발생한 것으로 생각되는 하장간막 동정맥루 환자를 경험하였고 장절제 없이 동정맥루 혈관절제술만으로 성공적으로 치료하였다. 이번 증례는 외상으로 인해 발생한 후천성 하장간막 동정맥루의 국내 외 최초 보고라는 점에서 의의가 있겠다.

REFERENCES

1. Van Way CW 3rd, Crane JM, Riddell DH, Foster JH. Arteriovenous fistula in the portal circulation. *Surgery* 1971;70:876-890.
2. Baranda J, Pontes JM, Portela F, et al. Mesenteric arteriovenous fistula causing portal hypertension and bleeding duodenal

- varices. *Eur J Gastroenterol Hepatol* 1996;8:1223-1225.
3. Capron JP, Ginston JL, Remond A, et al. Inferior mesenteric arteriovenous fistula associated with portal hypertension and acute ischemic colitis. Successful occlusion by intraarterial embolization with steel coils. *Gastroenterology* 1984;86:351-355.
 4. Fabre A, Abita T, Lachachi F, et al. Inferior mesenteric arteriovenous fistulas. Report of a case. *Ann Chir* 2005;130:417-420.
 5. Hirner A, Häring R, Bost H, Sörensen R. Hyperkinetic portal hypertension. Arteriportal fistula: problems—case reports—review of the literature. *Chirurg* 1978;49:303-310.
 6. Houdard C, Helenon C, Carles JF, et al. Inferior mesenteric arteriovenous fistula and ulcerative rectocolitis. *Arch Fr Mal App Dig* 1970;59:463-474.
 7. Kim IH, Kim DG, Kwak HS, Yu HC, Cho BH, Park HS. Ischemic colitis secondary to inferior mesenteric arteriovenous fistula and portal vein stenosis in a liver transplant recipient. *World J Gastroenterol* 2008;14:4249-4252.
 8. Manns RA, Vickers CR, Chesner IM, McMaster P, Elias E. Portal hypertension secondary to sigmoid colon arteriovenous malformation. *Clin Radiol* 1990;42:203-204.
 9. Matsui A, Iwai K, Kawasaki R, Wada T, Mito Y, Doi T. Transcatheter embolization of an inferior mesenteric arteriovenous fistula with frequent mucous diarrhea. *Nihon Shokakibyō Gakkai Zasshi* 2007;104:194-199.
 10. Metcalf DR, Nivatvongs S, Andrews JC. Ischemic colitis: an unusual case of inferior mesenteric arteriovenous fistula causing venous hypertension. Report of a case. *Dis Colon Rectum* 2008;51:1422-1424.
 11. Nemcek AA Jr, Yakes W. SIR 2005 Annual Meeting Film Panel case: inferior mesenteric artery-to-inferior mesenteric vein fistulous connection. *J Vasc Interv Radiol* 2005;16:1179-1182.
 12. Okada K, Furusyo N, Sawayama Y, et al. Inferior mesenteric arteriovenous fistula eight years after sigmoidectomy. *Intern Med* 2002;41:543-548.
 13. Oyama K, Hayashi S, Kogure T, Kirakawa K, Akaike A. Inferior mesenteric arteriovenous fistula. -Report of a case and review of the literature. *Nihon Igaku Hoshasen Gakkai Zasshi* 1980;40:944-950.
 14. Peer A, Slutzki S, Witz E, Abrahamsohn R, Bogokowsky H, Leonov Y. Transcatheter occlusion of inferior mesenteric arteriovenous fistula: a case report. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1989;12:35-37.
 15. Pietri J, Remond A, Reix T, Abet D, Sevestre H, Sevestre MA. Arteriportal fistulas: twelve cases. *Ann Vasc Surg* 1990;4:533-539.
 16. Sabatier JC, Bruneton JN, Drouillard J, Elie G, Tavernier J. Inferior mesenteric arteriovenous fistula of congenital origin. A report on one case and review of the published literature (author's transl). *J Radiol Electrol Med Nucl* 1978;59:727-729.
 17. Tomomi I, Yoshinori I, Norihide S, Masayuki H, Takehisa I. A case of iatrogenic inferior mesenteric arteriovenous fistula. *Jpn J Vasc Surg* 2005;14:597-600.
 18. Türkvatan A, Ozdemir Akdur P, Akdoğan M, Cumhuri T, Olçer T, Parlak E. Inferior mesenteric arteriovenous fistula with ischemic colitis: multidetector computed tomographic angiography for diagnosis. *Turk J Gastroenterol* 2009;20:67-70.
 19. Pasternak BM, Cohen H. Arteriovenous fistula and forward hypertension in the portal circulation. *Angiology* 1978;29:367-373.
 20. Isik FF, Greenfield AJ, Guben J, Birkett D, Menzoian JO. Iatrogenic arteriportal fistulae: diagnosis and management. *Ann Vasc Surg* 1989;3:52-55.