

## 신생아에서 발생한 위 Dieulafoy 병변의 내시경적 헤모클립법 치료 1예

충남대학교 의학전문대학원 소아과학교실

이 용 욱 · 신 지 혜 · 장 미 영 · 김 재 영

### Endoscopic Hemoclippping Treatment for Gastric Dieulafoy Lesion in a Newborn

Yong Wok Lee, M.D., Ji Hye Shin, M.D., Mea Young Chang, M.D. and Jae Young Kim, M.D.

Department of Pediatrics, Chungnam University College of Medicine, Daejeon, Korea

Dieulafoy's lesion is defined as a small mucosal defect overlying an abnormal, large caliber submucosal artery that protrudes through the gastrointestinal mucosa. This lesion is a rare cause of massive upper gastrointestinal bleeding in the pediatric population and extremely rare in neonates. We report a 1-day-old neonate who presented with massive gastrointestinal bleeding caused by a gastric Dieulafoy lesion, which was successfully treated by endoscopic hemoclippping without any complications. (*Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2011; 14: 393~397)

**Key Words:** Dieulafoy lesion, Endoscopic hemoclippping, Newborn

#### 서 론

Dieulafoy 병변은 점막하동맥이 점막 결손으로 노출되어 다량의 급성 출혈을 일으키는 일종의 혈관 기형으로 드물게 발생한다<sup>1)</sup>. 호발 시기는 50세 이후로<sup>1)</sup> 소아에서는 발생이 드물며<sup>2~4)</sup>, 신생아에서는 문헌상에 3예가 보고되어 있다<sup>5,6)</sup>. 과거에는 주로 수술로 치료가 이

루어졌으나, 최근에 내시경 기구와 기술이 발달하면서 성인뿐만 아니라 소아에서도 내시경적 지혈 치료가 1차로 선택되며, 대부분에서 재출혈 없이 치료가 된다. 그러나 신생아에서 사용하는 외경 6.5 mm나 7.5 mm의 소아내시경은 생검 채널의 직경이 2 mm로 좁아서 지혈 치료에 필요한 부속기구를 사용하지 못하는 한계가 있다. 저자들은 생후 20시간경에 토혈과 다량의 흑혈변이 발생한 신생아에서 Dieulafoy 위 병변을 진단하고 헤모클립(HemoClip)으로 재출혈이나 시술과 관련된 합병증 없이 성공적으로 치료한 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

접수 : 2011년 9월 28일, 수정 : 2011년 10월 26일, 승인 : 2011년 10월 28일

책임저자 : 김재영, 301-721, 대전시 중구 대사동 640

충남대학교병원 소아청소년과

Tel: 042-280-7249, Fax: 042-255-3158

E-mail: pedkim@cnuh.co.kr

## 증 례

환 자: 이○○, 생후 20시간, 남아

주 소: 다량의 토혈

병 력: 재태연령 38주, 체중 2.7 kg, 제왕절개로 출생한 남아가 출생 직후 수유를 시작하였다. 수유 후 소량의 구토를 보이다가 생후 20시간경에 갑자기 다량의 토혈을 보여 전원되었다. 산모의 임신력과 아기의 출생력에 특이소견은 없었다.

진찰소견: 전원 당시에 급성 병색으로 창백하였고,

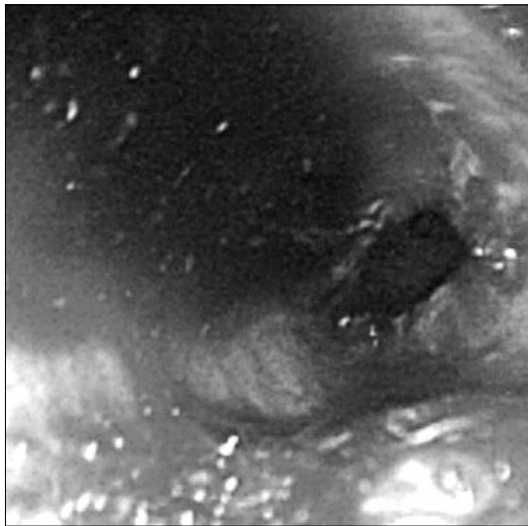


Fig. 1. Endoscopic finding shows refluxed fresh blood in the lower esophagus with position change.

혈압 62/34 mmHg, 맥박수 160회/분, 호흡수 50회/분이었다. 복부 진찰에서 특이소견은 없었다.

진단검사소견: 말초혈액검사에서 혈색소 9.2 g/dL, 헤마토크리트 25.6%, 혈소판 218,000/mm<sup>3</sup>, 백혈구 16,490/mm<sup>3</sup>, AST 38 IU/L, ALT 7 IU/L, 알부민 3.2 g/dL, PT/aPTT 17.7/58.3초, Fibrinogen 162.6 mg/dL, Anti Thrombin III 40%, D-dimer 1.06 ug/mL, ABGA pH 7.45, pCO<sub>2</sub> 27 mmHg, pO<sub>2</sub> 76 mmHg, HCO<sub>3</sub> 18.8 mmol/L였다.

치료 및 경과: 생후 28시간에 외경 6.5 mm 소아내시경으로 응급 상부위장관내시경검사를 시행하였으나 위 체부의 저부에 위 내용물과 섞인 큰 혈괴가 형성되어 있어서 시야가 좋지 않아 병변을 관찰할 수 없었다. 양와위, 우측 와위로 체위 변화를 하여 병변 확인을 시도했으나 위 용적에 비해 상대적으로 혈괴가 커서 병변은 관찰되지 않고 혈액이 식도까지 역류되지만 하였다(Fig. 1). 활력 징후를 자주 확인하고 pantoprazol을 투여하며 경과 관찰을 하였고 생후 72시간에 다시 내시경검사를 하였다. 경과 관찰 동안에 4차례 다량의 흑혈변이 나왔으나 혈색소가 8.1 g/dL 이하로는 저하되지 않았고 혈압도 정상을 유지하여서 수혈은 하지 않았다. 두 번째 내시경검사 시에 혈괴가 모두 사라지고 없어서 내시경 시야가 확보되었으며, 위 하체부의 대만부에서 혈괴가 붙은 돌출된 혈관을 발견하였다(Fig. 2). 돌출된 혈관에서 출혈은 없는 상태였고, 식도, 위, 십이지장에 다른 이상은 없었다. 재출혈의 예방을 위해 기계적 혈관 결찰법을 계획하였고, 다음 날 짧은 헤모클립(Easy clip, Hx610-090S; Olympus Optical, Co., Ltd., Tokyo,



Fig. 2. Second endoscopic exam reveals a clot covering, nonbleeding, protruding vessel with minute mucosal inflammation in the greater curvature of the lower body.

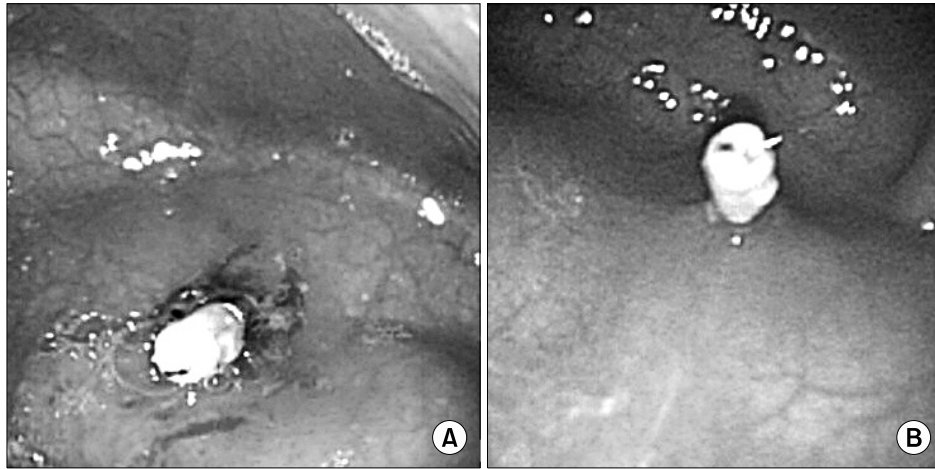


Fig. 3. Endoscopic view of Dieulafoy's lesion showing endoscopic hemoclippping (A). Follow-up endoscopic finding shows no visible vessel and a proper attached hemoclip on the gastric Dieulafoy lesion (B).

Japan)이 준비되어 이를 이용하여 돌출된 혈관을 결찰하였다(Fig. 3A). 이후 H2 수용체 길항제를 투여하고 6일 후에 추적 내시경검사를 하여 재출혈의 위험성이 없음을 확인하고(Fig. 3B) 퇴원하여 외래에서 추적관찰 중이다.

## 고 찰

신생아에서 상부위장관 출혈은 드물게 발생한다. 대부분 식도염, 위미란, 위 및 십이지장 궤양에 의해 출혈이 유발되지만, 드물게 Dieulafoy와 같은 혈관 기형도 출혈을 유발할 수 있으므로 감별 진단에 포함시켜야 한다. 신생아에서 상부위장관 출혈은 신생아 가사, 패혈증, 저산소증, 지속적인 기계 환기 등의 위험인자가 있을 때 더 잘 발생하지만 이들 위험인자와 관련 없이 발생하기도 한다. 본 증례는 임신력이나 출생력에 특별한 문제가 없었던 정상 만삭 출생아에서 토혈이 발생하였고, 감별 진단을 위해 시행한 응급 내시경 검사에서 Dieulafoy 병변을 확인하고 치료한 경우이다.

Dieulafoy 병변은 1884년 Gallard가 치명적 토혈을 일으킨 증례의 원인을 submucosal miliary aneurysm이라고 보고한 이후에 Dieulafoy가 다량의 상부 위장관 출혈로 사망한 3명의 환자의 부검에서 부식된 위동맥을 발견하고 이를 exulceratio simplex라고 기술하였다<sup>7)</sup>. 이후에 cirroid aneurysm, caliber persistent artery, submucosal arterial malformation 등 여러 가지 이름으로 불려오다가 최근에는 Dieulafoy 병변으로 지칭되고 있다<sup>7)</sup>.

발생 연령은 다양하나 호발 연령은 50~70세이며, 남자에서 2배 정도 많이 발생한다고 보고된 바 있다<sup>1)</sup>. 소아에서의 보고는 많지 않으며, 신생아에서의 문헌 보고는 만삭아로 태어나 생후 19시간, 생후 22시간, 생후 3일에 각각 토혈이 발생되어 Dieulafoy 병변으로 진단된 3예가 있다<sup>5,6)</sup>. 본 증례도 임신력과 출산력에 특별한 문제없이 정상 만삭아로 태어나 생후 20시간에 토혈이 발생되어, 신생아에서 보고된 첫 두 증례와 출생 후 증상 발생 시점이 비슷하였다.

발병 기전이 명확히 규명되지는 않았지만 정상에서는 장벽 내 동맥이 장막에서 근육층을 지나 점막하층으로 분지될수록 직경이 작아지지만 Dieulafoy 병변은 직경의 감소 없이 점막하층을 지나 점막근판까지 정상 분지 시보다 10배 정도 큰 직경인 1~3 mm 정도로 주행하면서 다양한 길이로 뒤틀리는데 2차 점막 결손을 통해 노출된 혈관이 손상되면 다량의 출혈이 일어나게 된다<sup>8)</sup>. 병변은 주로 위식도 접합부 6 cm 이내의 위저부와 위상체부에서 관찰되는데, 위의 다른 부위는 점막하 동맥문합층에서 혈관이 분지되어 혈관 직경이 작은 것에 비해 이 부위는 좌위동맥에서 직접 혈관이 분지되어 혈관 직경이 크기 때문이다<sup>1,7,9)</sup>.

임상 소견은 선행하는 특별한 증상 없이 급작스럽게 나타나는 다량의 토혈과 흑혈변 또는 선혈변이 섞인 흑혈변이며, 출혈은 일시적으로 소실되었다가 치료하지 않으면 다시 반복하는 특징이 있다<sup>9,10)</sup>.

진단은 내시경에 의해 이루어지지만 작은 병변이 위 주름 사이에 있거나 신생아나 어린 영아에서는 내시경

술기의 미숙이나 경험 부족으로 병변을 놓칠 수도 있다. Reilly와 Al-Kawas<sup>9)</sup>의 보고에 의하면 성인에서 초회 내시경검사에서 Dieulafoy병이 진단된 경우는 49%, 두 번 이상의 내시경검사서 추가 진단이 가능했던 경우는 33%, 시험적 개복술 등을 통해 추가 진단된 경우는 18%였다. 다른 보고<sup>11,12)</sup>에서도 초회 내시경검사서 병변이 발견된 경우는 50~82%였다. 이는 다량의 출혈로 인한 혈액이나 혈괴 등에 의해 병변이 가려지고 내시경 시야가 좋지 않은 것이 주 이유이다. 때로는 저절로 지혈이 되었거나 동반된 다른 병변이 있을 때에도 진단이 잘못될 수 있다. 다량의 출혈로 인한 혈액이나 위 내용물과 섞인 큰 혈괴로 인해 병변의 확인이 어려운 경우에 환자의 체위 변화가 병변을 찾는 데 도움이 된다고 알려져 있다<sup>13)</sup>. 그러나 본 증례에서는 신생아여서 위 용적이 작고 상대적으로 위 내용물과 섞인 혈괴가 커서 첫 번째 내시경검사에서는 체위 변경을 해도 시야가 확보되지 않아서 병변을 확인할 수가 없었으며, 혈괴가 사라진 두 번째 내시경검사서 병변을 확인할 수 있었다. Dieulafoy 병변의 내시경 소견은 (1) 작은(<3 mm) 점막 결손 부위(또는 정상 점막으로 둘러싸여 있는 부위)에서 발생한 박동성 또는 불출성 출혈, (2) 출혈 유무와 관계없이 작은 점막 결손부위(또는 정상 점막으로 둘러싸여 있는 부위)에 노출되어있는 혈관, 혹은 (3) 작은 점막 결손부위(또는 정상 점막으로 둘러싸여있는 부위)에 협소하게 부착되어진 혈괴 등이다<sup>19,14)</sup>. 본 증례에서도 위내시경검사서 정상 점막으로 둘러싸여 있는 부위에 부착되어진 혈괴와 노출 혈관을 관찰할 수 있었다.

치료는 내시경적 지혈법이 일차 선택 치료법으로 국소 주입법<sup>2,11,15)</sup>, 열응고법<sup>16)</sup>, 헤모클립법<sup>5)</sup>, 밴드 결찰법<sup>17)</sup> 등 다양한 방법이 있다. 전기 응고법과 지혈제 국소 주입법을 동시에 시행할 경우 병변의 점막 크기와 깊이를 증가시켜서 위 천공의 발생 위험성이 증가될 수 있으므로 주의를 요한다<sup>18)</sup>. 고무밴드 결찰술은 점막하 혈관의 일부분만 결찰될 수 있어서 잔류 혈관에서 재출혈이 발생할 가능성이 있을 뿐 아니라, 과도한 흡입으로 인한 천공, 조기 밴드 탈락으로 인한 대량출혈의 위험성이 있다<sup>17)</sup>. 헤모클립법은 비정맥류 위장관 출혈에 매우 효과적인 치료법으로 Dieulafoy 병변으로 인한 출혈 환자들을 후향적으로 분석한 결과에서 다른 치료법에 비해 보다 지혈률이 높고 시술이 간편하면서 합병증이 적은 시술로

보고되었다<sup>15,19)</sup>. 지금까지 신생아에서 보고된 Dieulafoy 위병변의 치료를 보면 1예는 헤모클립법으로 효과적으로 치료하였고<sup>5)</sup>, 2예는 기관지내시경을 이용하여 희석 에피네프린 국소주입법으로 치료하였다<sup>6)</sup>. 본 증례에서도 헤모클립법을 이용하여 Dieulafoy 위 병변을 효과적으로 치료 하였는데, 지혈 치료에 필요한 부속 기구를 사용하기 위해서 식도 직경이 4~6 mm 정도 되는 2.7 kg의 신생아에게 외경 9.2 mm의 내시경을 사용해야 하는 부담이 있었으나 산소포화도의 저하나 시술과 관련된 문제나 합병증 없이 헤모클립법으로 재출혈 없이 안전하게 치료할 수 있었다.

## 요 약

Dieulafoy 병변의 내시경적 지혈 치료법으로 헤모클립법, 지혈제 국소주입법, 전기 응고법, 고무밴드 결찰술 등 다양한 방법이 이용되고 있다. 이 중에서 헤모클립법은 성인에서는 합병증 발생률이 낮고 재출혈률이 낮은 치료법으로 알려져 있다. 저자들은 2.7 kg의 신생아에서 Dieulafoy 병변을 진단하고 헤모클립법으로 별다른 문제없이 치료한 증례를 경험하였기에 보고한다.

## 참 고 문 헌

- 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;27:213-22.
- 2) Stockwel JA, Werner HA, Marsano LS. Dieulafoy's lesion in an infant: a rare cause of massive gastrointestinal bleeding. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2000;31:68-70.
- 3) Lee ES, Oh CH, Kim JW, Chung KS, Han SJ. A case of Dieulafoy's disease in a child. *Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1999;2:80-4.
- 4) Kim HJ, Shin JS, Seo JW. Endoscopic management with ethanol injection in a child with gastric Dieulafoy lesion. *Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2003;2:187-91.
- 5) Lee YJ, Oh JM, Park SE, Park JH. Successful treatment of a gastric Dieulafoy's lesion with a hemoclip in a newborn infant. *Gastrointest Endosc* 2003;57:435-6.
- 6) Koo YH, Jang JS, Cho JH, Han SH, Ryu SH, Lee SW, et al. Endoscopic injection treatment for gastric Dieulafoy lesion in two newborn infants. *Korean J Gastroenterol*

- 2005;46:413-7.
- 7) Schmulewitz N, Baillie J. Dieulafoy lesions: a review of 6 years of experience at a tertiary referral center. *Am J Gastroenterol* 2001;96:1688-94.
  - 8) Miko TL, Thomazy VA. The caliber persistent artery of the stomach: A unifying approach to gastric aneurysm, Dieulafoy's lesion, and submucosal arterial malformation. *Hum Pathol* 1988;19:914-21.
  - 9) Reilly HF, Al-Kawas FH. Dieulafoy's lesion: diagnosis and management. *Dig Dis Sci* 1991;36:1702-7.
  - 10) Durham JD, Kumpe DA, Rothbarth LJ, Van Stiegmann G. Dieulafoy disease: arteriographic findings and treatment. *Radiology* 1990;174:937-41.
  - 11) Baettig B, Haecki W, Lammer F, Jost R. Dieulafoy's disease: Endoscopic treatment and follow up. *Gut* 1993;34:1418-21.
  - 12) Grisendi A, Lonardo A, Della casa G, Frazzoni M, Pulvirenti M, Ferrari AM, et al. Combined endoscopic and surgical management of Dieulafoy vascular malformation. *J Am Coll Surg* 1994;179:182-6.
  - 13) Lee JH, Lee SH, Bae WY, Park JH, Park DH, Chung IK, et al. The usefulness of positional change in endoscopic hemostasis for bleeding Dieulafoy's lesion. *Korean J Gastrointest Endosc* 2006;32:168-72.
  - 14) Lee YT, Walmsley RS, Leong RW, Sung JJ. Dieulafoy's lesion. *Gastrointest Endosc* 2003;58:236-43.
  - 15) Parra-Blanco A, Takahashi H, Méndez Jerez PV, Kojima T, Aksoz K, Kiriara K, et al. Endoscopic management of Dieulafoy lesions of the stomach: a case study of 26 patients. *Endoscopy* 1997;29:834-9.
  - 16) Kim YS, Choung RS, Kim KO, Koh DW, Cho YJ, Kim HJ, et al. A case of Dieulafoy's lesion of the terminal ileum treated by colonoscopic electro coagulation. *Korean J Gastrointest Endosc* 2001;23:499-502.
  - 17) Jeong EJ, Bae YM, Kim KH, Heo J, Heo JH, Chu HJ, et al. Clinical feature and the effects of endoscopic band ligation of Dieulafoy-like lesion. *Korean J Gastrointest Endosc* 2002;24:267-72.
  - 18) Bedford RA, van Stolk R, Sivak MV Jr, Chung RS, Van Dam J. Gastric perforation after endoscopic treatment of a Dieulafoy's lesion. *Am J Gastroenterol* 1992;87:244-7.
  - 19) Ko JH, Lee KJ, Jeoung ST, Kwon OY, Ko YY, Jee SB, et al. Comparison of various endoscopic injection therapy and hemocliping for bleeding peptic ulcers. *Korean J Gastrointest Endosc* 1998;18:817-24.