

Dieulafoy 병변 소아의 내시경적 치료 1례

이화여자대학교 의과대학 소아과학교실

김 현 진 · 신 지 선 · 서 정 완

Endoscopic Management with Ethanol Injection in a Child with Gastric Dieulafoy Lesion

Hyun Jin Kim, M.D., Jee Seon Shin, M.D. and Jeong Wan Seo, M.D.

Department of Pediatrics, College of Medicine, Ewha Womans University, Seoul, Korea

The Dieulafoy's lesion is a rare cause of recurrent massive gastrointestinal bleeding in children. The bleeding results from an abnormally large submucosal artery that protrudes through a small mucosal defect. The lesion is commonly found on proximal stomach. Surgical intervention was believed to be the best treatment in the past, but recent advancement in endoscopy has made effective hemostasis possible. We report a case of a 9-year-old boy with underlying mycoplasma pneumonia with effusion who presented with massive upper gastrointestinal bleeding. Bleeding was controlled with endoscopic treatment by epinephrine and ethanol injection and the patient was successfully treated. (*Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2003; 6: 187~191)

Key Words: Dieulafoy's lesion, Massive gastric bleeding, Endoscopic treatment, Child

서 론

소아에서 다량의 위장관 출혈은 흔하지 않으며, 주로 간문맥압 항진증과 만성 간질환에 의한 식도 정맥류의 출혈이 흔하다. Dieulafoy 병변은 비정상적으로 확장된 점막하 동맥이 작은 점막 결손에 의해 소화관 내로 노출된 병변¹⁾으로 심한 출혈이 재발

하며 쉽게 출혈 부위를 찾을 수 없어서 임상적으로 중요한 의미를 갖는다. 대부분 위식도 접합부 6 cm 이내에 발생하는 질환으로 알려져 있으나, 드물게 십이지장, 소장, 대장에서도 보고되고 있다²⁾.

저자들은 폐렴을 주소로 내원 후 다량의 토혈과 혈변을 보인 9세 남아에서 Dieulafoy 병변을 내시경으로 진단하고 국소 주사법으로 성공적인 지혈을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

접수 : 2003년 8월 30일, 승인 : 2003년 9월 6일
책임저자 : 서정완, 158-710, 서울특별시 양천구 목동 911-1
이화여자대학교 의과대학 소아과학교실
Tel: 02-2650-5573, Fax: 02-2653-3718
E-mail: jwesoo@ewha.ac.kr

증 례

환 아: 김○○, 9세, 남아

주 소: 4일간의 고열과 기침

현병력: 내원 4일 전부터 발열과 기침이 있어 폐렴으로 입원하여 치료 중 입원 3일째에 갑작스런 다량의 토혈과 흑변이 발생하였다.

과거력 및 가족력: 평소 건강하였으며 소화성 궤양 등의 과거력은 없었다. 가족력에서 특이 소견은 없었다.

신체 진찰: 상부 위장관 출혈 당시 혈압은 90/50 mmHg, 맥박수는 140회/분, 호흡수는 40회/분, 체온은 38°C이었으며, 급성 병색이었으나 의식은 명료하였다. 두경부 소견에서 결막은 창백하였고, 공막에 황달은 없었다. 흉부 청진에서 나음이 양측 폐에서 들렸으며 좌측 폐는 호흡음이 감소되어 있었다. 심음은 빨랐으나 규칙적이었으며, 심잡음은 들리지 않았다. 복부 촉진에서 상복부 압통이 있었으나 반사통은 없었고 종괴는 만져지지 않았다. 직장 수지 검사에서 흑변이 관찰되었다.

혈액 검사: 입원 당시 말초 혈액 검사에서 혈색소 11.8 g/dL, 혈구백분율 33.5%, 백혈구 19,500/mm³, 혈소판은 286,000/mm³이었으며 토혈 시 말초 혈액 검사에서는 혈색소 8.9 g/dL, 혈구백분율 26.7%, 백혈구 22,000/mm³, 혈소판은 335,000/mm³이었다. 혈액 생화학 검사에서 혈당 134 mg/dL, 총단백 4.6 g/dL, 알부민 2.3 g/dL, AST 13 IU/L, ALT 17 IU/L, PT/aPTT 11.7초/27.4초였으며 CRP는 26.8 mg/L였다. 그 외 검사 소견은 정상이었다. 대변 잠혈 검사는 양성 소견을 보였다. 항마이코플라스마 항체의 역가는 1 : 80에서 1 : 320으로 3주 동안 4배 증가하였다.

방사선 검사: 단순 흉부 촬영에서 양측 폐에 음영증가와 침윤 및 좌측 폐에 흉막 삼출액 소견이 있었다. 단순 복부 촬영에서는 약간의 가스 팽만 소견이 있었다.

상부 소화관 내시경 검사: 출혈 당일 시행한 상부 소화관 내시경 검사에서 다량의 출혈 및 혈괴로 위체부와 위기저부의 점막을 관찰할 수 없었다. 전정부와 십이지장 점막은 정상이었다. 다시 시행한 위내시경 검사에서 위 분문부에서 소만을 따라 4 cm 정도 하방에 뚜렷한 궤양 소견 없이 약 5 mm의 돌출된 혈관 주위로 혈액이 스며나오는 출혈 소견이

보였다(Fig. 1). 병변 주위로 1 : 10,000 에피네프린 14 mL와 순수 에탄올 1.7 mL를 주입하였다(Fig. 2).

치료 및 경과: 지혈 후 토혈은 없었으나 혈변과 빈혈 소견이 지속되어 이틀 후 시행한 위내시경 검사에서 조금씩 스며나오는 출혈이 있어 에탄올 1.0

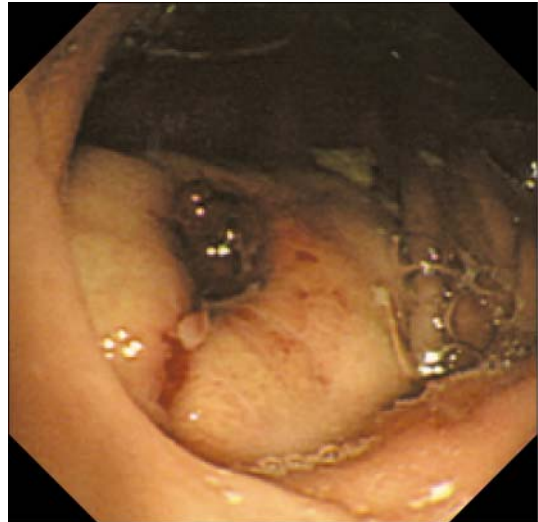


Fig. 1. Endoscopic finding shows a bright red-colored exposed vessel without mucosal ulcer on gastric cardia.

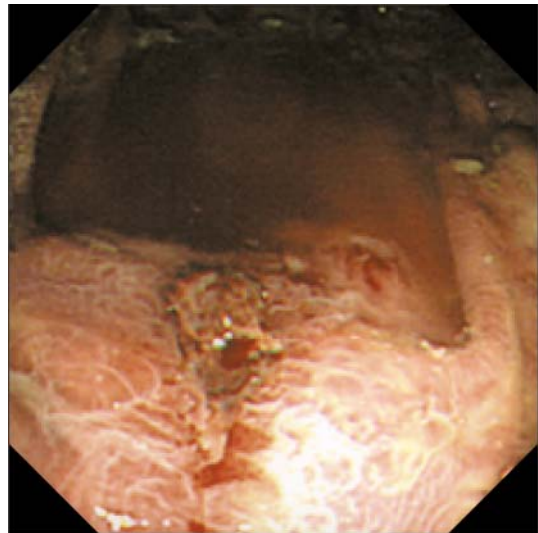


Fig. 2. After injection of ethanol and epinephrine on Dieulafoy lesion.



Fig. 3. Follow-up endoscopic finding shows a flattened lesion covered by blood clots, with mild surrounding edema.

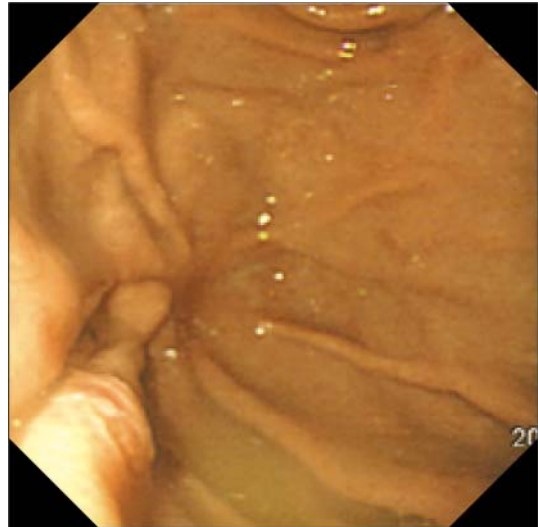


Fig. 4. After three weeks of ethanol injection mucosa appears normal except scar.

mL를 재주입하였다. 이틀 뒤 추적 내시경 검사에서 노출되었던 혈관이 응고되어 검게 보이며 주위로 얇은 껍질이 있었고, 출혈의 소견은 없었다(Fig. 3). 환아는 내시경적 지혈 및 H₂ 수용체 길항제, octreotide, omeprazole을 투여 받았다. 삼 주 뒤 시행한 위 내시경 검사에서 병변은 희미한 반흔이 관찰되었으나 정상 소견을 보였다(Fig. 4). 환아는 늑막 삼출이 동반된 마이코플라스마 폐렴 치료 후 퇴원하였으며 현재 외래에서 추적 관찰 중이다.

고 찰

Dieulafoy 병변은 상부 위장관 출혈 원인의 약 0.3~6.7%를 차지하며 주로 중년 이후의 남자에서 많이 발견된다²⁾. 소아에서는 빈도가 명확히 알려져 있지 않으며 드물게 증례 보고만 있다.

Dieulafoy 병변은 비정상적으로 큰 점막하 동맥이 2~5 mm의 작은 점막 결손 부위를 통해 파열되는 드문 질환으로 치명적인 위장관 출혈을 일으킨다. Dieulafoy 병변은 소화기 어느 부위에서나 발생할 수 있어 식도, 십이지장, 소장, 대장에서도 보고되고

있다^{3~5)}. 병변의 발생 부위는 식도-위 접합부 6 cm 이내의 위의 근위부인데, 특히 소만측을 따라 호발한다. Reillyer와 Al-Kawas¹⁾의 177 증례 분석에 의하면 67%가 상부 체부, 25%가 위저부에 위치하였다. Zanten 등²⁾의 101 증례에서는 82%가 식도 위 접합부 6 cm 이내의 상부 체부에 위치하였는데 이 중 62%가 소만측에 있었다고 보고하였다. 상부 체부와 위저부의 소만 측에 호발하는 이유는 이 부위의 점막하 동맥은 소만을 따라 주행하는 좌 위동맥에서 직접 분지되어 직경이 굵은 반면 위의 다른 부분은 직경이 작은 점막하 혈관총에서 분지되기 때문일 것으로 추정하고 있다.

발병 기전에 대하여는 현재까지 논란이 많으나 점막하 동맥이 구불구불하게 주행 중에 점막근육관과 만나는 부위에서 혈관의 직경이 가늘어지지 않고 굵은 직경이 유지되어 혈관 상부 점막의 미약한 손상 또는 점막의 손상으로 혈관이 노출되면 다량의 출혈을 유발한다는 Miko와 Thomazy⁶⁾이 주장이 가장 널리 인정되고 있다.

혈관이 파열되는 기전에 대해서는 Goldman⁷⁾은 압력에 의한 괴사로 비후된 혈관이 노출되고 부식

에 의해 천공된다고 하였고 **Juler** 등⁸⁾은 점막하에 선천적으로 큰 만곡 혈관이 존재하며 만성 위염으로 혈관 내막의 섬유화에 의하여 혈관벽의 괴사가 유발되며 외부 자극 및 내압 증가 등의 물리적인 힘이 가해질 때 천공된다고 하였다.

임상 증상은 일반적으로 전구 증상 없이 갑작스럽게 단시간 동안 다량의 출혈을 보이며 토혈, 혈변 또는 흑색변으로 시작되고 대부분 저혈압, 쇼크 등을 유발하는 심한 출혈이다. 출혈은 일시적으로 소실되었다가 수시간이나 수일 후에 다시 반복되는 것이 특징이다.

진단과 치료는 과거에는 대부분 수술에 의존하였으나 최근에는 내시경 검사로 진단과 치료를 시도한다. 내시경 소견으로는 약 2~5 mm 정도의 경계가 명료한 점막 결손 부위에 돌출된 혈관이나 부착된 혈관이 관찰되며 주위 점막은 정상으로 관찰된다. 병변의 크기가 작아 활동성 출혈이 멈춘 후에는 병변이 위점막 주름 속에 숨겨져 있어 주의 깊게 관찰하여야 발견되고 혈관에 부착된 혈관 때문에 간과하기 쉬우며 호발 부위인 상부 체부와 위 기저부에 다량의 혈액이 고여 있을 때에는 초기 내시경 검사로는 진단이 어려워 반복적인 검사에서 진단되는 경우가 많다. 1회 내시경으로 진단할 수 있는 **Dieulafoy** 병은 49%로 보고되고 있으며 33%는 두 번 이상의 내시경 검사로 진단이 가능하였으며, 18%에서는 혈관 조영술 및 시험적 개복술에 의하여 진단할 수 있었다고 보고하였다¹⁾. 뚜렷한 병변 없이 심한 상부 위장관 출혈이 있을 때 불필요한 수술을 피하기 위하여 반복적인 내시경을 시행하여야 한다.

치료는 과거에는 외과적 절제술이 원칙이었으나, 최근 내시경 기술의 발달로 내시경 지혈술로 80~90% 이상의 높은 치료 성공률을 보이고 있다^{9,10)}. 내시경을 이용한 치료법으로는 지혈제 국소 주입법^{9,10)}, 양극성 전기 응고법¹¹⁾, 레이저 지혈요법¹²⁾, hemoclipping 및 고무 밴드 결찰술^{13,14)} 등 다양한 방법이 시도되고 있으며 단독 요법 및 병합 요법이 시행되고 있다. 그러나 서로 비교한 연구가 없어 어떤 방법이 가장 효과적인지 논란의 여지가 많다.

Pointner 등¹¹⁾은 전기 응고법과 지혈제 주사법을

동시에 시행하였고 각각의 지혈술보다 효과적이었다고 보고하였다. 고무밴드 결찰술의 경우 점막의 섬유화가 없는 **Dieulafoy** 병변에서 hemoclipping과 함께 효과적인 지혈법으로 보고되고 있다. 그러나 점막하 혈관의 일부만 결찰될 경우 밴드 탈락 후 잔류 혈관에서 재출혈의 가능성 및 과도한 흡인으로 천공의 위험성 등이 있다.

내시경적 지혈술로 주사된 지혈제로는 순수 에탄올, 에피네프린, 1% polidocanol, hypertonic glucose, HSE (hypertonic saline과 에피네프린) 등이 사용되어 왔다. 지혈제의 선택은 아직 확립되어 있지 않다. 에피네프린과 HSE는 혈관 수축 작용과 국소 압박 효과로써 지혈시키며 조직 손상이 적은 대신 혈관 내 혈전 형성 효과가 없어 일시 지혈의 경향이 있다. 순수 에탄올과 polidocanol은 혈전을 형성하여 지혈되며 주입부의 조직 괴사 및 궤양이 동반된다. 본 증례에서는 내시경적으로 에피네프린과 순수 에탄올을 국소적으로 주입하여 **Dieulafoy** 병변을 성공적으로 지혈하였다.

요 약

Dieulafoy 병변은 비정상적으로 확장된 점막하 동맥이 소화관 내로 노출되어 발생하는 병변으로 위장관 출혈의 드문 원인이다. 저자들은 폐렴으로 입원 중 다량의 토혈과 혈변을 보인 9세 남아에서 상부 소화관 내시경으로 **Dieulafoy** 병변을 진단하고 순수 에탄올 국소 주사법으로 성공적으로 치료하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Reilly HF III, Al-Kawas FH. Dieulafoy's lesion. Diagnosis and management. Dig Dis Sci 1991;36:1702-7.
- 2) Veldhayzen van Zanten SJ, Bartelsman JF, Schipper MEI, Tytgat GN. Recurrent massive hematemesis from Dieulafoy vascular malformation - a review of 101 cases. Gut 1986;27:213-22.
- 3) Scheider DM, Barthel JS, King PD, Beale GD. Dieulafoy-like lesion of the distal esophagus. Am J Gastro-

- enterol 1994;89:2080-1.
- 4) Richard WO, Grove-Mahoney D, Williams LF. Hemorrhage from a Dieulafoy type ulcer of colon: a new cause of lower gastrointestinal bleeding. *Am Surg* 1988;54:121-4.
- 5) Dy NM, Gostout CJ, Balm RK. Bleeding from the endoscopically identified Dieulafoy lesion of the proximal small intestine and colon. *Am J Gastroenterol* 1995;90:108-12.
- 6) 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.
- 7) Goldman RL. Submucosal arterial malformation of the stomach with fatal hemorrhage. *Gastroenterology* 1964;46:589-93.
- 8) Juler GJ, Labitzke HG, Lamb R, Allen R. The pathogenesis of Dieulafoy's gastric erosion. *Am J Gastroenterol* 1984;79:195-200.
- 9) Baettig B, Haecki W, Lammer F, Jost R. Dieulafoy's disease: endoscopic treatment and follow up. *Gut* 1993;34:1418-21.
- 10) Stark ME, Gostout CJ, Balm RK. Clinical features and endoscopic management of Dieulafoy's disease. *Gastrointest Endosc* 1992;38:545-50.
- 11) Pointner R, Schwab G, Konigsrainer A, Dietze O. Endoscopic treatment of Dieulafoy's disease. *Gastroenterology* 1988;94:563-6.
- 12) Al-Kawas FH, O'Keefe J. Nd:YAG laser treatment of a bleeding Dieulafoy's lesion. *Gastrointest Endosc* 1987;33:38-9.
- 13) Brown GR, Harford WV, Jones WF. Endoscopic band ligation of an actively bleeding Dieulafoy lesion. *Gastrointest Endosc* 1994;40:501-3.
- 14) Vandervoort J, Montes H, Soetikno RM, Ukomadu C, CarrLodke DL. Use of endoscopic band ligation in the treatment of ongoing rectal bleeding. *Gastrointest Endosc* 1999;49:392-4.