

CASE REPORT

궤양출혈과 감별이 어려운 원발성 대동맥-장관루 1예

김재수, 한정호¹, 강민호², 최영락¹, 채희복¹, 박선미¹, 윤세진¹

유성 선병원 내과, 충북대학교 의과대학 내과학교실¹, 영상의학과²

A Case of Primary Aortoenteric Fistula Mimicking Ulcer Bleeding

Jae Su Kim, Joung-Ho Han¹, Min Ho Kang², Young Rak Choi¹, Hee Bok Chae¹, Seon Mee Park¹ and Sei Jin Youn¹

Department of Internal Medicine, Yuseong Sun Hospital, Daejeon, Departments of Internal Medicine¹ and Radiology², Chungbuk National University College of Medicine, Cheongju, Korea

Primary aortoenteric fistula (PAEF) is a rare disease with a high mortality rate due to massive hemorrhaging and diagnostic difficulties. Although hemorrhagic regions can be identified by endoscopy, it is difficult to diagnose PAEF by this method. If PAEF is suspected, endoscopic procedure should be terminated and abdominal CT should be performed. Overlooking the herald bleeding of PAEF can lead to massive bleeding and death. An 85-year-old previously healthy male presented with a complaint of melena. Gastrointestinal endoscopy identified a hemorrhagic site in the third portion of the duodenum and endoscopic hemostasis was performed. However, during the procedure, it became apparent that the hemorrhage was probably not the result of a simple duodenal ulceration and abdominal CT was performed immediately. An aortic aneurysm connected to the duodenum was identified, confirming the diagnosis of PAEF. However, the patient died of massive hemorrhaging before an operation could be performed. (*Korean J Gastroenterol* 2013;61:343-346)

Key Words: Aortic aneurysm, abdominal; Intestinal fistula; Gastrointestinal hemorrhage; Endoscopic hemostasis

서 론

원발성 대동맥 장관루(primary aortoenteric fistulae)는 복부 대동맥으로부터 위장관으로 직접 연결되는 누공에서 대량 출혈이 일어나는 위장관 출혈의 드문 원인이다. 하지만, 진단이 지연되거나, 신속한 외과적 수술을 시행하지 않으면 사망률은 100%에 이르기 때문에 간과해서는 안되는 질환이다.¹

최근에는 전산화단층촬영술의 향상으로 쉽고 빠른 진단이 가능해져, 대동맥 장관루가 의심되는 환자에서 초기 진단 검사로 권유되고 있다.² 하지만 실제 임상에서는 상부위장관 출혈이 의심되는 보통의 경우 내시경이 우선 시행되기 때문에, 다른 위장관 출혈과 육안으로는 감별이 어려운 대동맥 장관루를 일반적인 궤양 출혈로 오인하고 내시경 지혈 치료를 하는

경우 오히려 대량 출혈을 유발할 수 있다.³

저자들은 평소 건강했던 85세 남자가 흑색변을 주소로 내원하여 시행한 상부내시경 검사에서 십이지장 3구역 부위의 출혈을 확인하고 내시경 지혈 치료를 시행하던 중, 일반적인 궤양 출혈과 다른 양상을 보여 복부 CT 검사를 시행하고 원발성 대동맥 장관루로 진단한 경험을 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

84세 남자 환자가 3일 전부터 하루 1-2차례 발생한 흑색변을 주소로 응급센터로 내원하였다. 환자는 평소 건강하였으며 고혈압, 당뇨, 음주력, 흡연력 등은 없었다.

Received September 24, 2012. Revised October 20, 2012. Accepted October 31, 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: 한정호, 361-771, 청주시 흥덕구 1순환로 776, 충북대학교 의과대학 내과학교실

Correspondence to: Joung-Ho Han, Department of Internal Medicine, Chungbuk National University College of Medicine, 776 1 Sunhawn-ro, Heungdeok-gu, Cheongju 361-711, Korea. Tel: +82-43-269-6057, Fax: +82-43-273-3252, E-mail: joungho@cbnu.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

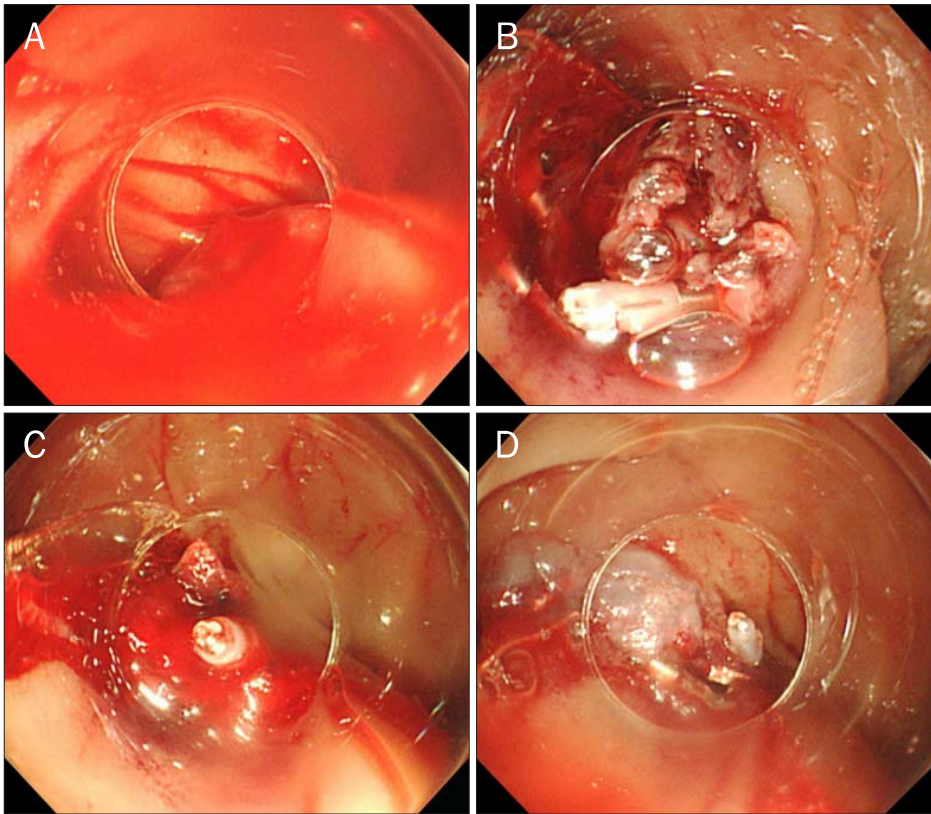


Fig. 1. Endoscopic findings. (A) Fresh duodenal bleeding after blood clot removal. (B, C) Continuous bleeding after clipping of the necrotized mucous membrane. (D) Stoppage of the bleeding after fibrin glue injection.

내원 시 생체 징후는 혈압 90/60 mmHg, 맥박수 82회/분, 호흡수 25회/분, 체온 37.2°C이었으며 급성 병색을 보였다.

결막은 다소 창백하였으며, 복부는 부드럽고 장음은 약간 항진되어 있었다. 압통 및 반발통은 없었고 복부 종괴 및 장기의 비대는 촉진되지 않았으며, 직장 수지검사에서 흑색변이 관찰되었다.

일반 혈액검사는 백혈구 9,140/mm³, 혈색소 8.8 g/dL, 적혈구용적률 23.1%, 프로트롬빈 시간 16초, INR 1.33, 활성화부분트롬보플라스틴 시간 43.7초였으며, 일반 화학검사에서 AST 34 IU/L, ALT 14 LU/L, 총 빌리루빈 1.5 mg/dL, 혈액요소질소 15 mg/dL, 크레아티닌 1.0 mg/dL였다.

상부위장관 출혈이 의심되어 시행한 상부위장관 내시경검사에서 식도, 위, 십이지장 구부까지는 출혈의 소견이 없었으나, 십이지장 원위부로부터 신선 혈이 올라오는 것이 관찰되었다. 내시경의 루핑(looping) 때문에 십이지장 3구역으로 진입할 수 없어 내시경 선단에 투명 캡을 장착한 후 진입한 십이지장 3구역 부위에 큰 혈괴가 관찰되었고, 혈괴를 제거한 부위에서 출혈이 관찰되었다(Fig. 1A). 여러 차례 내시경 클립(QuickClipII; Olympus Optical Co. Ltd., Tokyo, Japan)을 이용하여 출혈 부위의 결찰을 시도하였으나, 출혈 부위와 주변의 점막이 약하고 미끄러워 충분히 결찰되지 않았다(Fig. 1B, C). 국소지혈제 fibrin glue (Greenplast[®], 1 mL/ampule;

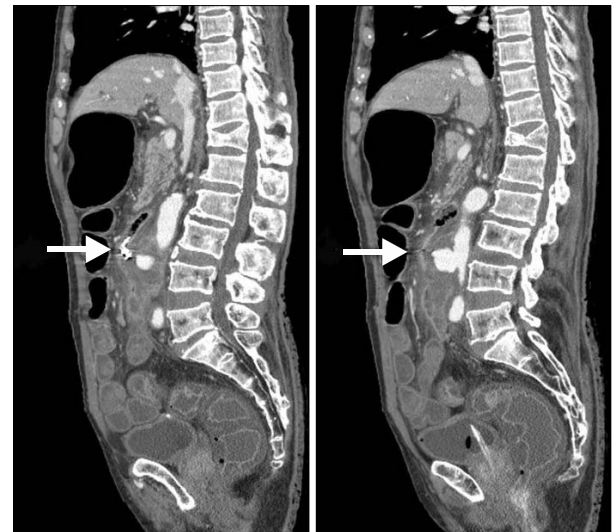


Fig. 2. Transverse abdominal CT showing communications between the abdominal aortic aneurysm (about 3.5 cm in diameter) and the third portion of the duodenum (visible hemo clips) (arrows).

Green Cross, Yongin, Korea) 2 mL를 주입하고 출혈은 멈추었다(Fig. 1D).

그러나 바늘 주입기(needle injector)를 점막에 주사할 때 바늘이 저항감 없이 안쪽으로 밀려들어 가는 양상이 있어, 보통의 장관 내 출혈이 아니라 외부의 혈관이나 종괴에서의 출

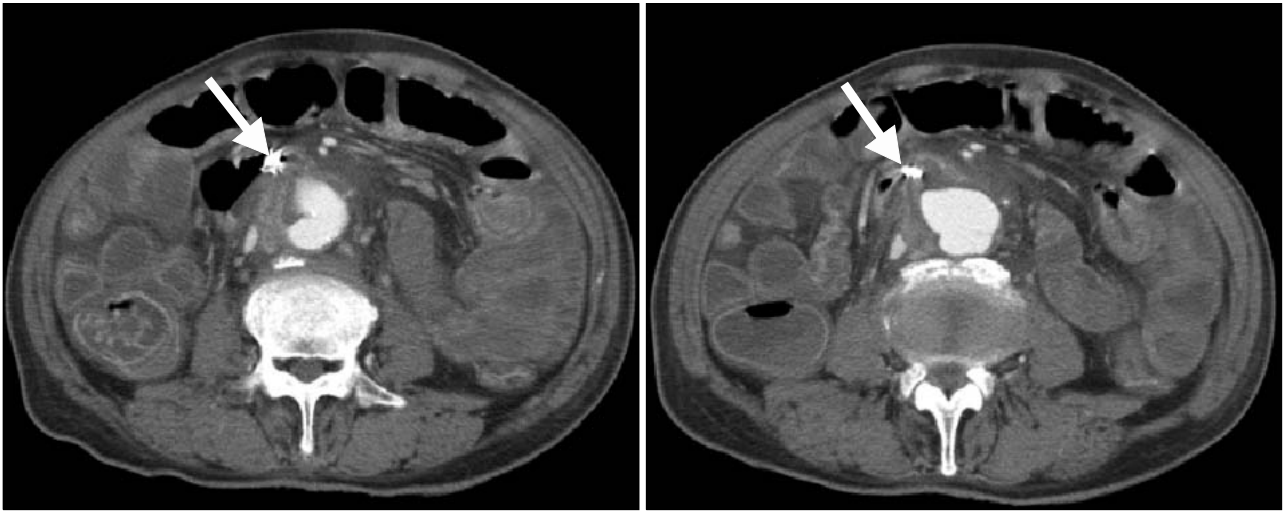


Fig. 3. Sagittal abdominal CT showing communications between the saccular abdominal aortic aneurysm of the abdominal aorta (lumbar levels 3-4) and the distal duodenum (arrow).

혈이 2차적으로 장관 내로 들어오는 질환의 가능성을 의심하고, 복부 CT를 응급으로 시행하였다. CT에서 요추 3-4번째 높이에서 약 3.5 cm 크기의 낭상 복부 대동맥류(saccular abdominal aortic aneurysm) 및 동맥류로부터 십이지장의 3구역과 연결되어 있는 대동맥 장관루가 발견되었다(Figs. 2, 3).

복부 CT 후 생체 징후는 혈압 120/80 mmHg, 맥박수 75회/분, 호흡수 20회/분으로 안정적이었지만, 응급 수술을 기다리던 중(복부 CT 검사 후 약 30분 경과 시점), 대량의 혈변과 저혈량성 쇼크로 사망하였다.

고 찰

대동맥 장관루는 원발성 또는 이차성으로 구분되며, 원발성의 발생 빈도가 더 낮은 것으로 알려져 있다. 원발성 대동맥 장관루는 대동맥류의 드문 합병증이며 치명적인 위장관 출혈의 원인이다. 부검의 예에서 원발성 대동맥 장관루 발견 빈도는 0.04-0.07%이며, 이 중 75%는 60세 이상의 남자에서 발견되었고, 85%는 평균 직경 6.2 cm 크기의 복부 대동맥류와 연관되어 있었다.^{3,4}

원발성 대동맥 장관루는 소화관 어느 부위에서도 발생이 가능하나 십이지장 원위부에서 가장 많이 발생하며(72.9%), 약 2/3는 십이지장 3구역 부위에서, 나머지 1/3은 4구역 부위에서 관찰된다.⁵ 특히 십이지장 3구역은 후복막강에 고정되어 있고 대동맥의 바로 앞에 위치하며, 지속적인 대동맥의 박동이 전달되기 때문에 발병 빈도가 높다.³

대동맥 장관루의 특징적인 세 가지 증후는 위장관 출혈(64%), 복통(32%), 박동성 복부 종괴(25%)이나, 환자의 10.0-27.8%에서만 나타난다.⁶ 위장관의 대량 출혈이 나타나기 전

소량의 전구 출혈(herald bleeding)은 이 질환의 특징적인 소견으로, 출혈 사이의 시간 간격은 수시간 혹은 수개월 후에 생명을 위협할 정도의 대량 출혈을 일으키고, 30%에서 6시간 안으로 발생한다고 한다.^{1,3}

전구 출혈은 대개 소량이고 저절로 멈추는 양상을 보이는데, 초기에 저혈압이나 국소적인 혈류 감소로 인한 혈관 연축(vasospasm)이나 혈전(thrombus)이 일시적으로 위장관 출혈을 막기 때문이다. 하지만 수액 투여나 수혈로 인하여 혈압이 정상으로 회복되거나 내시경 시술로 인하여 치명적으로 악화될 수 있다. 이는 혈전이 장루(fistula)를 막고 있다가 위장관 연동운동으로 인해 혈전이 떨어지면서 대동맥으로부터 대량의 출혈이 발생할 수 있기 때문이다.⁷

상부위장관 출혈의 가장 빈번한 원인은 소화성 궤양, 식도 정맥류 등이므로 환자의 생체 징후가 안정적일 때 먼저 상부 위장관 내시경을 시행하는 것이 원칙이다. 그러나 대동맥 장관루가 의심되는 환자에서의 내시경검사는 상부위장관 출혈의 다른 원인을 확인하기 위한 것이며, 대동맥 장관루를 확인할 목적으로 시행하면 대량 출혈의 위험이 있다. 내시경검사로 대동맥 장관루를 진단할 확률도 25.0-62.5%로 낮다.⁸

복부 CT는 빠른 진단이 가능하고 덜 침습적이며, 내시경이나 혈관조영술처럼 장루를 막고 있던 혈전이 떨어져 나가 대량 출혈이 발생할 가능성도 적다.⁹ 복부 CT에서의 직접적인 소견은 대동맥 안에 공기 음영이 있고 인접한 위장관 내로 조영제가 누출되는 것이다. 대동맥류와 인접한 장관벽의 비후나 대동맥류의 벽, 대동맥과 위장관 사이의 지방층 소실 등의 간접적 소견이 있다.¹⁰ 또한 복부 CT 대동맥조영상(aortogram)의 영상을 함께 촬영하면 진단율을 52% 증가시킬 수 있으며, 혈액학적으로 안정적인 환자들에서 가장 민감한 진단

방법으로 간주된다.³ 혈관조영술은 동맥의 해부학적 구조를 명확히 알 수 있어 확진이 가능하나, CT에 비해 진단율이 낮고 대량 출혈의 가능성이 있다.³ 치료는 과거에는 혈관의 우회적인 수술이었지만, 현재는 수술을 통한 장관루를 일차 봉합하여 폐쇄하고 대동맥류의 인공삽입물 치환술을 시행하고 있다.

내시경 경화치료술에 사용되는 주사침에 의한 장관 밖 대량 출혈의 증례보고가 있으므로,^{11,12} 이번 증례에서도 국소 지혈제 삽입 중 대동맥 손상에 의한 의인성 대동맥 장관루의 가능성도 제기될 수 있을 것이다. 하지만 영미권의 문헌고찰에서 내시경 경화치료에 의해 발생한 의인성 대동맥 장관루의 증례를 찾을 수 없었으며, 이번 증례에서 시술 직후 촬영한 복부 CT에서 복부 대동맥류 및 이와 연결된 대동맥 장관루를 확인하였으므로 의인성으로 발생한 급성 대동맥 장관루의 가능성은 낮을 것으로 보인다.

결론으로 복부 대동맥류를 진단받은 60세 이상의 남성에서 반복적인 위장관 출혈이 있는 경우, 내시경에서 십이지장 3구역 등 비전형적인 부위의 출혈, 출혈 부위 주변에서의 외부 압박 또는 박동이 관찰되는 경우 등의 병력과 내시경 소견을 종합적으로 고려하여, 대동맥 장관루의 가능성이 있으면 즉시 내시경 시술을 중지하고 복부 CT 촬영을 시행하여 대동맥 장관루의 가능성을 배제해야 할 것이다.

REFERENCES

1. Lemos DW, Raffetto JD, Moore TC, Menzoian JO. Primary aortoduodenal fistula: a case report and review of the literature. *J Vasc Surg* 2003;37:686-689.
2. Lee JT, Saroyan RM, Belzberg G, Pianim NA, Bongard FS. Primary aortoenteric fistula: computed tomographic diagnosis of an atypical presentation. *Ann Vasc Surg* 2001;15:251-254.
3. Saers SJ, Scheltinga MR. Primary aortoenteric fistula. *Br J Surg* 2005;92:143-152.
4. Ihama Y, Miyazaki T, Fuke C, et al. An autopsy case of a primary aortoenteric fistula: a pitfall of the endoscopic diagnosis. *World J Gastroenterol* 2008;14:4701-4704.
5. Lozano FS, Muñoz-Bellvis L, San Norberto E, Garcia-Plaza A, Gonzalez-Porras JR. Primary aortoduodenal fistula: new case reports and a review of the literature. *J Gastrointest Surg* 2008;12:1561-1565.
6. Song Y, Liu Q, Shen H, Jia X, Zhang H, Qiao L. Diagnosis and management of primary aortoenteric fistulas-experience learned from eighteen patients. *Surgery* 2008;143:43-50.
7. Tozzi FL, da Silva ES, Campos F, Fagundes Neto HO, Lucon M, Lupinacci RM. Primary aortoenteric fistula related to septic aortitis. *Sao Paulo Med J* 2001;119:150-153.
8. Baril DT, Carroccio A, Ellozy SH, et al. Evolving strategies for the treatment of aortoenteric fistulas. *J Vasc Surg* 2006;44:250-257.
9. Shree D, Jeppu S, Puneet P, Rani K. Computed tomography diagnosis of a primary aortoduodenal fistula in a patient with a partially thrombosed abdominal aortic aneurysm. *Jpn J Radiol* 2010;28:534-537.
10. Mylona S, Ntai S, Pomoni M, Kokkinaki A, Lepida N, Thanos L. Aorto-enteric fistula: CT findings. *Abdom Imaging* 2007;32:393-397.
11. Sugai K, Kajiwara E, Mochizuki Y, et al. Intramural duodenal hematoma after endoscopic therapy for a bleeding duodenal ulcer in a patient with liver cirrhosis. *Intern Med* 2005;44:954-957.
12. Sadio A, Peixoto P, Cancela E, et al. Intramural hematoma: a rare complication of endoscopic injection therapy for bleeding peptic ulcers. *Endoscopy* 2011;43(Suppl 2 UCTN):E141-E142.