

코일 색전술로 치료한 소아 Dieulafoy 병변 1예

인제대학교 의과대학 부산백병원 소아과학교실, *영상의학교실

정지미 · 송민섭 · 지근하 · 배재익* · 박오환*

A Case of a Dieulafoy Lesion Treated using Coil Embolization in a Child

Ji Mi Jung, M.D., Min Seob Song, M.D., Geun Ha Chi, M.D.,
Jae Ik Bae, M.D.* and Ao Whan Park, M.D.*

Departments of Pediatrics, *Radiology, Busan Paik Hospital, College of Medicine, Inje University, Busan, Korea

A dieulafoy lesion, which is an unusual cause of gastrointestinal bleeding that can be fatal in children. Dieulafoy lesions are characterized by an abnormally large eroded submucosal artery that is commonly located in the lesser curvature of the proximal stomach. In most cases, permanent hemostasis is achieved by endoscopic epinephrine injection, however, some patients require other endoscopic treatment modalities, embolization or surgery. We report here a case of a Dieulafoy lesion in an 11-year-old boy who had recurrent bleeding from the lesion in the duodenal bulb after endoscopic epinephrine injection and surgical ligation, that was successfully treated using coil embolization. (**Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr** 2007; 10: 193~196)

Key Words: Dieulafoy lesion, Coil embolization

서 론

Dieulafoy 병변은 위장관 출혈의 드문 원인으로 성인에서 전체 위장관 출혈의 0.3~6.7%를 차지하며 소아에서는 발병이 드물다¹⁾. 병변은 비교적 큰 직경의 점막하 동맥이 비정상적인 점막 결함에 의해 노출되고, 노출된 점막하층 동맥이 천공되면서 대량 출혈을 일으키

는 것이다²⁾. 병변은 위장관 어느 곳이나 발생할 수 있으나 주로 위식도 접합부에서 가까운 소만에서 호발한다. 치료는 최근 내시경 기술이 발달하면서 일차 내시경 기술로 90% 이상에서 지혈이 되나 실패할 경우에는 혈관 촬영술에 의한 색전술이나 수술을 하게 된다. 저자들은 내시경적 기술과 수술적으로 혈관 결찰 후에도 출혈이 재발된 Dieulafoy 병변을 가진 11세 남아에서 코일 색전술로 지혈된 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

접수 : 2007년 7월 31일, 승인 : 2007년 8월 30일
책임저자 : 송민섭, 614-735, 부산광역시 진구 개금동 633-165
인제대학교 의과대학 소아과학교실
Tel: 051-890-6290, Fax: 051-895-7785
E-mail: msped@hanmail.net

증 례

환 아: 소○○, 남아 11세

주 소: 내원 전날부터 시작된 흑색변과 토혈

현병력 및 과거력: 환아는 내원 전날과 내원 당일 새벽에 일어난 각각 1차례의 흑색변과 내원 전날 시작되

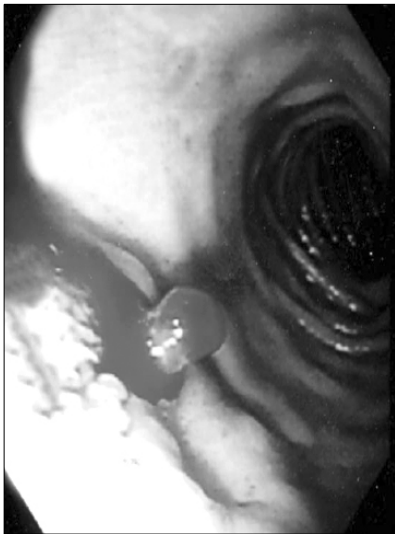


Fig. 1. Endoscopic finding shows active bleeding from the Dieulafoy's lesion in the anterior wall of duodenal bulb.

어 3차례 반복된 종이컵 반 정도의 토혈로 응급실에 내원하였다.

내원 12개월 전에 흑색변과 토혈로 입원하여 시행한 위장관 내시경 검사에서 십이지장 구부에 Dieulafoy 병변이 발견되어 내시경하 에피네프린 주사 후 지혈되어 퇴원하였다. 내원 3개월 전에 이전의 Dieulafoy 병변에서 재출혈이 있어 내시경으로 다시 에피네프린 국소 주사를 하였으나 출혈이 지속되어 수술적으로 혈관 결찰을 시행하였다.

진찰 소견: 내원 당시 혈압 80/40 mmHg, 맥박수 110 회/분, 호흡수 24회, 체온 36.6°C였다. 환아는 외견상 급성 병색을 띠었고 안면과 결막이 창백하였다. 흉부 청진에서 호흡음은 깨끗하였고 심음은 빨랐으나 규칙적이었다. 복부는 부드럽고 편평하였으며 장음은 감소되어 있었고 간비종대 및 종괴는 촉진되지 않았다.

검사 소견: 내원 당시 시행한 말초 혈액 검사에서 혈색소 7.6 g/dL, 적혈구 용적치 24.6%, 백혈구 6,100/mm³, 혈소판 341,000/mm³, PT 14.7초(82%), aPTT 58.5초였다. 혈청 생화학 검사에서 총단백 6.3 g/dL, 알부민 4.2 g/dL, 총 빌리루빈 0.2 mg/dL, AST 18 IU/L, ALT 11 IU/L, BUN 26 mg/dL, 크레아티닌 0.5 mg/dL였다. 대변 잠혈 검사는 양성이었다.

치료 및 경과: 응급으로 시행한 상부 위장관 내시경



Fig. 2. (A) A selective gastroduodenal angiography shows a small pseudoaneurysm (arrow) originated from a duodenal branch of the gastroduodenal artery, (B) The duodenal branch of gastroduodenal artery was embolized using microcoil (arrow). Post-embolization angiography reveals no visualization of pseudoaneurysm as well as patent gastropiploic artery.

검사에서 이전 결찰부 바로 아래쪽에서 돌출되어 출혈을 일으키고 있는 병소를 확인하고(Fig. 1), 에피네프린 국소 주사하였으나 지혈이 되지 않아 혈관 조영을 통한 색전술을 시행하였다. 복강 동맥(Celiac), 간 동맥(hepatic), 상창자간막 동맥(SMA), 위십이지장 동맥(gastro-duodenal) 혈관조영술을 시행하여 십이지장 분지동맥에서 기원한 거짓동맥류(pseudoaneurysm) 부위를 출혈 병소로 추정하고 이 부위에 microcoil 색전술 후에 출혈이 멎는 것을 확인하였다(Fig. 2). 농축 적혈구 540 mL 수혈 후 혈색소가 7.6 g/dL에서 10.3 g/dL로, 적혈구 용적치가 24%에서 30.5%로 상승하였고 그 후 낮아지지는 않았다. 3 병일째 흑색변 1차례 있었으나 이후 입원 기간 동안 더 이상 토혈이나 흑색변은 없었으며 대변 잠혈 검사는 음성이었다. 8 병일째 시행한 상부 위장관 내시경 검사에서 이전에 돌출된 혈관에서의 출혈은 관찰되지 않았다. 13 병일째 환아는 퇴원하였으며 3년 이상 재발 없이 지내고 있다.

고 찰

Dieulafoy 병변은 비정상적으로 큰 점막하 동맥이 2~5 mm의 작은 점막 결손 부위를 통해 파열되는 드문 질환이며 성인에서 일어나는 전체 위장관 출혈의 0.3~6.7%를 차지하며 치명적인 위장관 출혈을 일으킬 수 있다¹⁾. Dieulafoy 병변은 소화기 어느 부위나 발생할 수 있어서 식도, 십이지장, 소장, 대장에서도 발생이 보고되고 식도-위 접합부 6 cm 이내의 근위부 위소만부를 따라 호발한다²⁾.

역사적으로 1884년 Gallad가 점막하 속립성 동맥류(submucosal miliary aneurysm)로 최초 기술한 이래, 1898년 Dieulafoy는 대량의 상부 위장관 출혈 환자에서 “단순 포재성 궤양(exucratio simplex)”이란 병명으로 비교적 상세히 병변의 특징을 기술하였다³⁾.

발병 기전은 현재까지 논란이 많으나 점막하 동맥이 구불구불하게 주행하면서 점막근육판과 만나는 부위에서 혈관의 직경이 가늘어지지 않고 굵은 직경이 유지되면서 혈관 상부 점막의 손상으로 혈관이 노출되면 다량의 출혈을 유발한다는 Miko와 Thomazy의 주장이 가장 널리 인정되고 있다⁴⁾. 그러나 이러한 비정상적인 점막하 동맥이 파열되는 병인론에 대해서는 논란이 많다.

Goldman⁵⁾은 압력에 의한 괴사(pressure necrosis)에 의해 비후된 혈관이 노출되고 소화성 부식에 의해 천공된다고 하였고, Juler 등⁶⁾은 점막하에 선천적으로 큰 만곡 혈관이 존재하며 만성 위염으로 혈관 내막의 섬유화에 의하여 혈관벽의 괴사가 유발되고 외부 자극 및 내압 증가 등의 물리적인 힘이 가해질 때 천공된다고 하였다.

발생 연령은 생후 2일⁷⁾부터 93세⁸⁾까지 보고되어 있어서 어느 연령에서나 가능하지만, 소아에서는 매우 드물다^{9,10)}. 평균 연령은 52세로 남자가 여자에서보다 2배 가량 발생률이 높고 가족력의 소인은 없다. 위증상이나 위궤양의 병력은 없으며 흡연, 음주, 비스테로이드성 소염제와의 연관성은 일정치 않다. 임상 증상은 전구 증상 없이 갑작스럽게 단시간 동안 다량의 출혈을 보이며 토혈, 혈변 또는 흑색변으로 시작되고 대부분 저혈압, 쇼크 등이 유발되는 심한 출혈 양상을 보인다. 출혈은 일시적으로 소실되었다가 수 시간이나 수 일 이내 다시 반복되는 것이 특징이다. 드물게 소장에서 발생한 Dieulafoy 병변은 장중첩증이나 만성적인 복통과 위장관 출혈을 일으킬 수 있다⁴⁾.

예전에는 대부분 수술이나 부검에서 발견되었으나 최근에는 대부분 내시경 검사로 진단이 이루어지고 있다^{11,12)}. 상부 위장관 내시경 검사에서는 약 2~5 mm 정도의 경계가 명료한 점막 결손 부위에 돌출된 혈관에 부착된 혈전이 관찰되며 주위 점막은 정상이다. 병변은 크기가 작고 또한 호발 부위인 상부 체부와 위저부에 다량의 혈액이 고여 있어 수차례의 반복적인 검사에서야 비로소 진단되는 경우가 많다. Reilly와 al-Kawas의 보고¹³⁾에 의하면 처음 내시경 검사에서 진단된 경우는 49%로 두 번 이상 반복 내시경 검사로 진단률이 82%까지 증가하였다. 혈관 조영술은 내시경 검사에 비해 진단율은 높지 않으나, 내시경 검사에서 출혈 병소를 찾을 수 없는 경우에 출혈 위치의 판단에 도움이 되며 선택적 동맥 색전술로 지혈을 시도할 수도 있다. 그러나 출혈이 멈춘 후에는 진단에 도움이 되지 않으며 혈액 유출이 보인다 해도 특징적인 소견이 아니므로 진단에 이용될 수는 없다.

Dieulafoy 병변의 치료는 과거에는 외과적 절제술이 원칙이었지만 최근 내시경 치료법의 발달로 내시경적 지혈술이 일차 치료로 선택되고 있다^{14,15)}. 내시경적 지

혈술에는 내시경적 경화요법, 내시경적 전기 소작술, 내시경적 결찰술(hemoclipping), 순수 알코올이나 폴리도카놀(polidocanol), 고장액 식염수 에피네프린 등의 국소 주입 요법 및 전열기 탐침 치료법 등이 있으며, 단독 또는 병합 요법이 시행되고 있다¹⁶⁾. 그 외에도 선택적 동맥 색전술, 레이저 응고 치료법 등의 이용으로 수술의 빈도가 많이 감소하였다. 선택적 동맥 색전술의 적응증은 내시경적 지혈술이 실패하였을 경우, 내시경적 접근이 어려운 하부 장관 출혈의 경우 및 수술이 금기인 경우에 해당된다¹⁷⁾. 본 증례는 일차로 내시경적 치료와 수술적 혈관 결찰술을 시행하였으나 출혈이 재발하였던 환자에서 동맥 코일 색전술로 치유된 경우이다. 수술적 치료가 가장 확실한 치료로 알려져 있으나 수술적 혈관 결찰술 후에 Dieulafoy 병변이 재발하였던 보고가 있다¹⁸⁾. 본 증례에서도 수술 후 재발한 원인이 혈관 결찰술을 시행 할 때 점막하에 주행하는 확장된 점막하 동맥의 주행범위를 정확하게 예측하기 어렵기 때문일 것으로 추정되나 명확하지는 않다. 내시경을 이용한 치료 성공률이 12개월 추적 조사에서 75~95%로 비교적 좋은 편이나¹⁵⁾ 일차로 지혈이 되지 못한 경우 동맥 색전술이 소아에서도 유용할 것으로 생각된다.

요 약

저자들은 내시경적 에피네프린 국소 주입법과 수술적 혈관 결찰술 후에도 출혈이 재발된 Dieulafoy 병을 가진 환자에서 동맥 코일 색전술로 지혈된 증례를 문헌 고찰과 함께 보고한다.

참 고 문 헌

- 1) Overstreet Rabih AC, William SH. Dieulafoy's disease. *J Am Coll Surg* 2003;196:290-6.
- 2) Veldhayzen van Zanten SJ, Bartelsman JF, Schipper MEI, Tytgat GN. Recurrent massive hematemesis from Dieulafoy vascular malformation - a review of 101 case. *Gut* 1986;27:213-22.
- 3) Katz PO, Salas L. Less frequent causes of upper gastrointestinal bleeding. *Gastroenterol Clin North Am* 1993; 22:875-89.
- 4) 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.
- 5) Goldman RL. Submucosal arterial malformation ("aneurysm") of the stomach with fatal hemorrhage. *Gastroenterology* 1964;46:589-94.
- 6) Juler GL, Labitzke HG, Lamb R, Allen R. The pathogenesis of Dieulafoy's gastric erosion. *Am J Gastroenterol* 1984;79:195-200.
- 7) 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.
- 8) 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.
- 9) Lilije C, Greiner P, Riede UN, Sontheimer J, Brandis M. Dieulafoy lesion in a one-year-old child. *J Pediatr Surg* 2004;39:133-4.
- 10) Durham JD, Kumpe DA, Rothbarth LJ, Van Stiegmann G. Dieulafoy disease: arteriographic findings and treatment. *Radiology* 1990;174:937-41.
- 11) Romaozinho JM, Pontes JM, Lérias C, Ferreira M, Freitas D. Dieulafoy's lesion: management and long-term outcome. *Endoscopy* 2004;36:416-20.
- 12) Parra-Blanco A, Takahashi H, Méndez Jerez PV, Kojima T, Aksoz K, Kirihara K, et al. Endoscopic management of Dieulafoy lesions of the stomach: a case study of 26 patients. *Endoscopy* 1997;29:834-9.
- 13) Reilly HF 3rd, al-Kawas FH. Dieulafoy's lesion. Diagnosis and management. *Dig Dis Sci* 1991;36:1702-7.
- 14) Seinert D, Masnd-Rai A. Successful combination endoscopic therapy for duodenal Dieulafoy's lesion. *Am J Gastroenterol* 1996;91:818-9.
- 15) Stark ME, Gastout CJ, Balm RK. Clinical features and endoscopic management of Dieulafoy's disease. *Gastrointest Endosc* 1992;38:545-50.
- 16) Goldenberg SP, Deluca VA Jr, Marignani P. Endoscopic treatment of Dieulafoy's lesion of the duodenum. *Am J Gastroenterol* 1990;85:452-4.
- 17) Ghazi Alshumrani, Mohammed Almuaikeel. Angiographic findings and endovascular embolization in Dieulafoy disease: a case report and literature review. *Diagn Interv Radiol* 2006;12:151-4.
- 18) Yang CY. Recurrent Dieulafoy's lesion after surgical ligation. *Am J Gastroenterol* 1989;84:1464-5.