

말기 신질환 환자에서 다발성 공장 계실 및 혈관 이형성증에 의한 대량출혈

가톨릭대학교 의과대학 외과학교실

이준현 · 김 육 · 김정수 · 전해명

Massive Bleeding from Jejunal Diverticulosis with an Angiodysplasia in a Patient with End Stage Renal Disease

Jun Hyun Lee, M.D., Wook Kim, M.D., Jung Soo Kim, M.D. and Hae Myung Jeon, M.D.

Small bowel diverticulum, although not common and usually asymptomatic, can give rise to unexpected problems such as malabsorption, perforation, obstruction and bleeding. Bleeding from a diverticulum is often sudden and massive, therefore requiring emergency operation. We report herein a case of a 75-year-old man who presented with massive bleeding from multiple jejunal diverticula. He had been diagnosed with hypertensive end stage renal disease and treated with hemodialysis since 14 years previously. He was admitted with both hematemesis and hematochezia, and treated conservatively at first. However, bleeding continued and the anemia did not improve despite blood transfusions. An gastroduodenofiberscope and selected angiography revealed no bleeding focus. An emergency laparotomy was performed and multiple jejunal diverticula, distributed from 15 to 60cm distal to the ligament of Treitz, were found. A segment of the jejunum containing all diverticula was resected and end to end anastomosis was performed. A histologic examination revealed some dilated blood vessels in the submucosa of the diverticulum, which was compatible with the findings of the angiodysplasia. Based on these findings, we suggest that angiodysplasia was the cause of bleeding from the jejunal diverticula in this case. (J Korean Surg Soc 2002;63:513-516)

Key Words: Jejunal diverticulosis, Angiodysplasia, Massive bleeding, End stage renal disease

중심 단어: 공장 계실, 혈관 이형성증, 대량출혈, 말기 신질환

Department of Surgery, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Bucheon, Korea

서 론

메켈씨 계실을 제외한 소장계실은 비교적 드물지만, 지방과 비타민 B-12의 흡수장애, 출혈, 천공, 폐색 등의 합병증이 동반될 수 있다.(1) 이는 대장계실과 마찬가지로 대부분 가성계실로 소장의 장간막축에 주로 발생되는데, 회장보다는 공장에서 많고, 80%에서 다발성으로 발생된다. (2) 소장계실이 크고 다발성일 경우 소장조영술 등으로 발견이 되면, 계실을 포함한 소장을 절제함으로써 치료가 가능하지만, 크기가 작고 단발성일 경우에는 수술 중 발견되는 경우도 드물지 않다. 소장계실에 계속되는 자극으로 궤양이 발생되거나, 드물지만 혈관 이형성증이 동반되면 갑작스럽게 대량 출혈이 발생하여 응급 수술을 요하게 된다. 특히 혈관 이형성증은 장기간 혈액투석을 하고 있는 말기 신질환 환자에서 위장관 출혈의 주요 원인으로 알려져 있으며, 위 십이지장과 우측대장에 호발된다고 한다. (3,4) 저자들은 최근 만성 신부전증으로 혈액투석 중인 환자가 토혈과 혈변이 있었으나, 위 내시경 검사와 혈관 조영술상 출혈 부위가 확인되지 않은 상태에서 개복술로 발견된 혈관 이형성증을 동반한 다발성 공장계실 1예를 치험하였기에 보고하는 바이다.

증례

환자: 75세 남자, 손○○

주소: 내원 당일 발생한 토혈과 혈변으로 입원하였다.

과거력: 1989년부터 고혈압으로 인한 말기 신질환으로

책임저자 : 김 육, 경기도 부천시 원미구 소사동 2

④ 420-717, 가톨릭의과대학 성가병원 외과
Tel: 032-340-7022, Fax: 032-340-2668

E-mail: kimwook@hfh.cuk.ac.kr

접수일 : 2002년 8월 13일, 게재승인일 : 2002년 8월 22일



Fig. 1. Intraoperative finding shows multiple large diverticula at the mesenteric border of the jejunum.

항 고혈압제를 복용하면서 주 3회 혈액투석 중이며, 1997년에도 같은 증상이 있어 내과에서 시행한 위 내시경 검사상 특이소견은 발견되지 않았고, 증상이 저절로 호전되어 더 이상의 검사는 하지 않았다.

이학적 검사: 혈압 140/40 mmHg, 맥박 67회/분, 체온 36.5°C였고, 직장 수지 검사상 혈변 양성소견을 보였다.

검사실소견: 전혈검사상 해모글로빈/혈색소는 6.2 g/dl/17.6%, 혈소판 139,000/ μ L었고, 화학검사상 BUN/Cr 89.9/7.4 mg/dl, 총단백/알부민 5.05/2.55 g/dl이었으며, Na/K/Cl 142/4.8/105 mmol/L이었다. 혈액 응고 검사상 prothrombin time은 11.7초, 97.6%, INR은 0.99였으며, aPTT는 31초였고, bleeding time은 2분이었다.

위 내시경소견: 위 내부의 가득 찬 혈액 응고물 때문에 완전한 검사는 불가능했지만 특별히 출혈부위는 확인되지 않았다. 환자는 수혈과 수액 투여 등 보존적 치료 후 활력증후가 교정되었으나, 입원 2일째 재출혈이 있어, 다시 시행한 위 내시경 검사에서도 출혈부위는 확인되지 않았다.

선택적 혈관조영검사: 복강동맥을 통한 조영제 주입 후 특별한 출혈부위는 확인되지 않았으나, 위체양 출혈 의심 하에 좌 위동맥에 쇄전술을 시행하였고, 이후 출혈소견은 판찰되지 않았다.

수술소견: 입원 5일째에 토혈이 다시 발생되고 수축기 혈압이 40 mmHg로 하강하여 더 이상의 검사는 시행하지 못하고 출혈부위를 찾기 위해 응급 개복술을 시행하였다. 전신 마취하에 정중절개로 개복한 후, 우선 위체양 출혈을 확인하기 위해 위 절개를 시행하였으나, 특별한 궤양이나 출혈부위는 관찰할 수 없었다. 다른 출혈부위를 확인하던 중 트라이쓰 인대 15 cm 하방부터 60 cm까지 공장의 장간 막축으로 돌출된 다양한 크기의 다발성 계실이 발견되었다 (Fig. 1). 계실 내부에는 출혈되었던 혈액이 차 있었고 계실을 눌렀을 때 혈액이 공장 내부로 흘러 들어갔으며, 계실

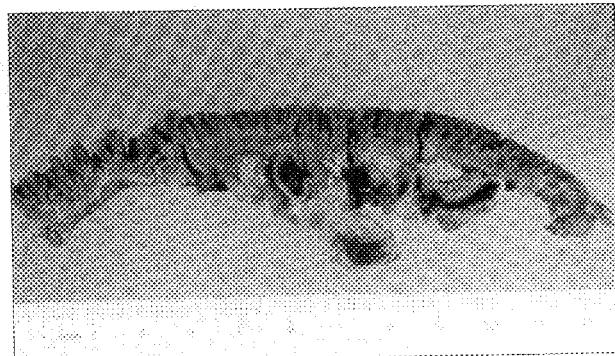


Fig. 2. Cross section of the jejunal specimen shows communication between jejunal lumen and diverticulum.

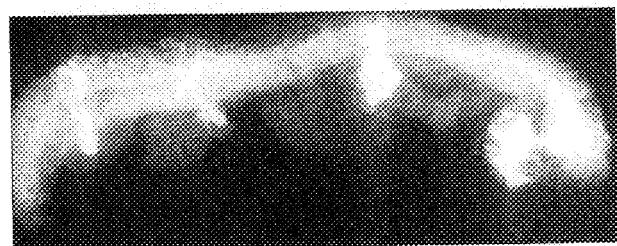


Fig. 3. Radiologic examination with gastrograffin injection shows connection between the diverticula and jejunal lumen.

원위부 소장에는 혈액들이 차 있었고, 대장에서는 계실이 의심될 만한 병소는 발견되지 않았다. 다발성 공장계실의 출혈로 간주하고 계실을 포함한 공장 부분 절제술과 단단문합술을 시행하였다.

복안소견: 절제된 공장내부에는 혈액이 차 있었고, 계실과 공장내부와는 연결되어 있었고 (Fig. 2), 계실에 수용성 조영제 주입 후 활영한 방사선 활영에서 계실과 공장내부와의 연결구가 확인되었다 (Fig. 3).

병리소견: 점막 하층에 비정상적으로 확장된 혈관들이 판찰되고 있었고 이는 혈관 이형성증의 소견과 부합되었다 (Fig. 4).

술 후 결과: 환자는 술 후 출혈은 없었으나, 술 후 5명일 째 폐 부전 및 비가역성 저혈류성 쇼크로 사망하였다.

고찰

심이지장 계실과 맥笳계 계실을 제외한 소장계실은 발생빈도가 낮아 소장 조영술에서 0.1~1.5%, 부검에서 0.1~1.4%가 발견된다고 한다.(5) 이 질환은 1794년 Seemering과 Bailhe가 처음 기술하였고, 국내에서는 1974년 김 등(6)이 처음 보고하였는데, 50~60대 남자에서 많고 회장보다는 공장에서 많아 80%의 발생빈도를 보이고, 5%에서는 공장과 회장 모두 발생된다고 한다.(7)

공장계실은 회장계실에 비해 다발성이고 크기가 큰 것이



Fig. 4. Histologic finding shows dilated blood vessels in the jejunal submucosa which is compatible with angiodysplasia (H&E $\times 100$).

특정인데, 원인은 대장계실과 마찬가지로 후천성이며, 계실벽은 점막과 점막하층으로만 구성되는 가상계실로, 소장의 평활근이나 장간막 신경총의 기능 저하로 수축 장애가 오고, 장내 압력이 증가되어 절과적으로 혈관이 장간막에서 소장 근육총과 장막 사이로 들어가는 곳의 점막이나 점막하층이 험몰되어기 때문에 발생된다고 한다.(8)

공장계실은 대부분 증상이 없지만 Longo 등(1)은 불분명한 복통, 빈혈, 단순 복부 방사선 활영상 소장의 확장 등이 의심될 만한 주요소견이고, 10~20%에서는 천공, 폐색, 출혈 등의 수술이 필요한 급성 합병증과 만성 복통이나 흡수장애 등의 만성 합병증이 동반될 수 있다고 하였다. 이중 흡수장애는 운동기능 저하로 소장액의 저류로 인해 증식된 장내 세균에 의해 비타민 B-12의 흡수가 증가되어 지방변화가 대체적아구 빈혈이 초래될 수 있다.(9)

출혈은 합병증 중에서 빈도가 가장 낮지만, 때로 갑작스러운 대량 출혈 때문에 저혈류성 쇼크를 일으킬 수 있는데, 출혈기전은 계실에서 발복적인 기계적 자극에 의한 손상이나 급성 계실염에 의한 혈양 형성 때문으로 알려져 있으나, 실제로 수술 후 절제된 장관에서 혈양이 발견되는 경우는 흔하지 않다.(10,11) Kawamura 등(8)은 39예의 절제 소장 중 11예에서는 미란이나 혈양소전을 발견할 수 없었다고 하였다. 혈양증이 없는 소장계실은 대부분 다른 질환을 위한 상

부 위장관 조영술 또는 전산화 단층촬영 등의 방사선학적 검사에서 우연히 발견되거나 수술 중에 발견되는 경우가 대부분이다.(7,12,13) 그러나 출혈성 공장개설의 전단율이 25% 미만으로 저조한 이유는 발생빈도가 낮아 이 질환을 의심하는 경우가 적을 뿐 아니라, 위나 대장내시경으로 도달이 불가능하고, 50%의 환자에서는 대장계실이 동반되므로 소장조영술 등의 검사가 생략되는 경우가 많기 때문이다.(7) 대량 출혈이 있는 경우에는 선택적 혈관조영술이나 동위원소 핵의학 검사가 진단에 도움을 줄 수 있지만, Kawamura 등(8)은 11예 중 4예서만 진단이 가능하다고 하였다. 출전이나 술 중에 진단이 모호하여 출혈부위의 정확한 위치 판정을 하기 어려운 경우에는 술 중 장 내시경을 이용하여 확인할 수 있고, 최근에는 복강경 보조하에 장 내시경을 이용하면 진단에 도움을 줄 수 있다고 한다.(12,14,15) 출혈성 공장개설로 절제를 했어도 조직검사상 혈양이 없어 정확한 출혈 부위가 확인되지 못하는 경우도 있다.(11)

말기 신질환 환자에서 위 장관 출혈은 위나 십이지장이 13~32%로 가장 많고 그 다음 대장, 공장이며, 원인 질환으로는 혈양, 혈관 이형성증의 순이다.(4) 특히 점막하층의 확장된 소혈관을 의미하는 혈관 이형성증은 장기간 혈액투석을 받고 있는 환자에서 66%, 신장이식 환자에서 17%에서 발생한다고 하는데,(3,4) 혈관 확장증(vascular ectasia), 동정맥 기형(A-V malformation), 혈관종(angioma), 모세혈관 확장증(telangiectasia) 등으로 불리지기도 한다.(16) 발생기전은 정확히 알려져 있지 않으나, 근육총으로 들어가는 점막하층의 정맥이나 소정맥의 지속적인 흐름으로 인해 정맥벽이 약아지면서 팽창되고, 시간이 지나면서 더욱 진행되어 모세혈관이 팽창되고 모세혈관 선 팔약근(precapillary sphincter)의 기능이 소실됨으로써 동 정맥간의 루가 발생된다.(3) 진단은 내시경이 가장 민감하여, 육안적으로는 뺨장고 남작하게 보이고, 크기는 2~10 mm로 모양은 별 또는 난원형으로 보이며, 혈관조영술상으로는 확장되어 있으면서 서서히 채워지는 경매 또는 초기 경매 충전을 동반하는 동정맥 기형이 특징이다. 50% 이상이 우측대장에 호발하고 특히 말기 신질환, 대동맥 협착증 또는 von-Willebrand 질환과 연관이 있다고 하는데, 말기 신질환 환자에서 혈관 이형성증의 발생원인은 아직 정확히 밝혀지지는 않았으나, 신질환의 기간과 심한 정도에 비례해서 나타난다고 한다.(4,16,17) 간 경화증 환자에서 혈관 확장의 가능성이 있는 가스트린의 증가와 펩시노젠-I의 감소가 위의 혈관 이형성증의 발생원인이라고 보고되었듯이, Navab 등(16)은 말기 신질환의 경우에서도 혈청 가스트린이 상승되어 있고 소변으로의 가스트린과 펩시노젠-I의 배출이 증가되어 있는 것으로 보아 연관이 있다고 하였다. 저자의 경우도 혈관 이형성증이 장기간 혈액투석을 받는 말기 신질환 환자의 공장계실에 동반되어 발생되었고, 조직검사상 혈양 등 특별한 출혈의

원인이 발견되지 않아, 이 부위에서 대량출혈이 발생되었을 것이라고 생각하고 있다.

소장계실의 치료는 증상이 없는 경우에는 정밀관찰이 요구되고, 출혈이 있는 경우 선택적 혈관조영술을 통한 vaso-pressin 투여를 고려할 수 있으나 그 효과가 만족스럽지 못하여, 대량출혈, 천공, 폐색 등의 합병증이 발생된 경우 계실이 위치한 소장의 부분절제가 원칙이다.(1,7,18)

결 론

위 장관 출혈의 원인으로 소장계실이 원인이 되는 경우는 드물다. 하지만 급, 만성적인 위 장관 출혈이 있는 환자에서 위, 대장 내시경 검사가 정상이라 할지라도, 후에 소장 조영술을 반드시 실시해야 하고, 특히 여러 검사상 출혈 부위가 확인되지 않는 경우에 소장계실에 의한 출혈을 고려해야 한다. 또한 계실 내 궤양이 없더라도 조직학적으로 혈관 이형성증이 동반되는 경우가 있어 이것이 출혈의 주요 원인이 될 수 있다. 특히 말기 신질환으로 장기적인 혈액투석을 받는 환자들은 위 장관 출혈이 빈번한데, 위나 십이지장, 대장, 공장 등의 혈관 이형성증이 주요 원인의 하나이므로 정확한 진단과 출혈부위의 위치판정이 중요하다. 저자들은 최근 말기 신질환 환자에서 공장의 다발성계실과 공존하는 혈관 이형성증에서 대량출혈이 발생된 예를 경험하였기에 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Longo WE, Vernava III AM. Clinical implication of jejunoileal diverticular disease. *Dis Colon Rectum* 1992;35:381-8.
- 2) Palder SB, Frey CB. Jejunal diverticulosis. *Arch Surg* 1988; 123:889-94.
- 3) Poralla T. Angiodysplasia in the renal patients: how to diagnose and how to treat? *Nephrol Dial Transplant* 1998;13:2188-91.
- 4) Chalasani N, Cotsonis G, Wilcox M. Upper gastrointestinal bleeding in patients with chronic renal failure: Role of vascular ectasia. *Am J Gastroenterol* 1996;91:2329-32.
- 5) Evers BM. Small bowel. In: Townsend CM, editor. *Textbook of Surgery: The Biological Basis of Modern Surgical Practice*. 16th ed. Philadelphia: W. B. Saunders; 2001. p.906-7.
- 6) Kim SH, Hong SD, Kwek JY. Multiple jejunal diverticulosis. *J Korean Surg Soc* 1974;16:57-9.
- 7) Chiu EJ, Shyr YM, Su CH, Wu CW, Lui WY. Diverticular disease of the small bowel. *Hepato-Gastroenterology* 2000;47: 181-4.
- 8) Kawamura S, Nishijima M, Yamamoto T, Sakai KI, Hirai H, Imano M, et al. Massive bleeding from multiple jejunal diverticula associated with an angiodysplasia: Report of case. *Surg Today* 2000;30:750-3.
- 9) Bree ED, Grammatikakis J, Christodoulakis M, Tsiftsis D. The clinical significance of acquired jejunoleal diverticula: Am J Gastroenterol 1998;93:2523-8.
- 10) Silen W, Brown WH, Orloff MJ, Watkins DH. Complications of jejunal diverticulosis. *Arch Surg* 1960;80:597-601.
- 11) Shackelford RT, Marcus WY. A cause of gastrointestinal hemorrhage. *Ann Surg* 1960;151:930-8.
- 12) Hazzan D, Reissman P, Meshulam D, Goljanin D, Shiloni E. Small-bowel pandiverticulosis-A potential source of recurrent gastrointestinal bleeding. *Scand J Gastroenterol* 1998;33:1321-3.
- 13) Zager JS, Garbus JE, Shaw JP, Cohen MG, Garber SM. Jejunal diverticulosis: A rare entity with multiple presentation, a series of cases. *Dis Surg* 2000;17:643-5.
- 14) Lahoti S, Fukami N. The small bowel as a source of gastrointestinal blood loss. *Curr Gastroenterol Rep* 1999;1:424-30.
- 15) Rodriguez HE, Ziauddin MF, Quiros ED, Brown AM, Podbielski FJ. Jejunal diverticulosis and gastrointestinal bleeding. *J Clin Gastroenterol* 2001;33:412-4.
- 16) Navab F, Masters P, Subramani R, Ortego TJ, Thompson CH. Angiodysplasia in patients with renal insufficiency. *Am Coll of Gastroenterol* 1989;84:1297-301.
- 17) Bass BL, Alvarez C. Acute gastrointestinal hemorrhage. In: Townsend CM, editor. *Textbook of Surgery: The Biological Basis of Modern Surgical Practice*. 16th ed. Philadelphia: W. B. Saunders; 2001. p.829-30.
- 18) Taylor MT. Massive hemorrhage from jejunal diverticulosis. *Am J Surg* 1969;118:117-20.