췌관내 가성동맥류 파열로 인한 Hemosuccus Pancreaticus 1예

고려대학교 의과대학 내과학교실 소화기내과

이예진, 현종진, 최주희, 심유라, 오홍권, 김환일, 이흥식, 김창덕

Hemosuccus Pancreaticus due to Intraductal Pseudoaneurysm

Ye Jin Lee, Jong Jin Hyun, Ju Hee Choi, Yura Sim, Hong Kwon Oh, Hwan Il Kim, Hong Sik Lee, Chang Duck Kim

Division of Gastroenterology and Hepatology, Department of Internal Medicine, Korea University College of Medicine, Seoul, Korea

Pseudoaneurysm is one of life-threatening complications of chronic or acute pancreatitis. It can lead to massive bleeding into the abdominal cavity, the retroperitoneum, or the gastrointestinal tract. Hemosuccus pancreaticus, meaning hemorrhage through the pancreatic duct into the duodenum is an important diagnostic clue suggesting the presence of pancreatic pseudoaneurysm. A 74-year-old man presented with hematochezia and active bleeding from the ampulla of Vater was noted on upper endoscopy. Abdominal computed tomography scan demonstrated a nodular enhancing lesion within the pancreatic duct. Celiac trunk angiography also showed a nodular enhancing lesion suggesting pseudoaneurysm in the pancreas. However, due to the difficulty of identifying the feeder artery of pseudoaneurysm by selective angiography, embolization was not feasible. Therefore, distal pancreatectomy was performed and ruptured pseudoaneurysm within the pancreatic duct could be confirmed. Herein, we report a case of hemosuccus pancreaticus due to ruptured intraductal pseudoaneurysm that was successfully treated by surgical management.

Korean J Pancreatobiliary 2016;21(1):40-44

Keywords: Pancreatitis, Pseudoaneurysm, Hemosuccus pancreaticus, Angiography, Pancreatectomy

Received Sep. 4, 2015

Revised Sep. 22, 2015

Accepted Oct. 11, 2015

Corresponding author: Jong Jin Hyun

Division of Gastroenterology and Hepatology,
Department of Internal Medicine, Korea University
Ansan Hospital, 123 Jeokgeum-ro, Danwon-gu,
Ansan 15355, Korea
Tel. +82-31-412-4856 Fax. +82-31-412-5582
E-mail; sean4h@korea.ac.kr

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.

Copyright © 2016 by The Korean Journal of Pancreas and Biliary Tract

서 론

Hemosuccus pancreaticus는 췌관을 통한 십이지장으로의 출혈을 의미하며, 가장 흔한 원인은 만성 췌장염에 동반된 가성동맥류의 파열이다.¹ 급성 또는 만성 췌장염의 합병증으로 드물게 발생하는 가성동맥류는 엘라스타아제, 프로테아제 등의 소화성 효소에 의해 췌장 주위 동맥의 혈관 외막이 손상되어 형성된다. 이러한 가성동맥류는 자가소화된 비정상적인 동맥벽이 확장되며 만들어진다는 점에서 동맥벽 전층의 확장으로 발생하는 진성동맥류와는 차이가 있으며 가

성동맥류와 연관되어 발생하는 경우가 많으나 가성동맥류 없이도 드물게 발생하는 것으로 알려져 있다.² 국내에서는 췌장의 가성동맥류 파열에 의한 위장관 출혈 증례가 산발적으로 보고된 바 있다.³⁻⁶

저자들은 알코올성 만성 췌장염 환자에서 발생한 췌관내 가성동맥류의 파열에 의한 대량의 위장관 출혈을 복부 전산화단층촬영과 혈관조영술을 통하여 진단 후 췌장 절제술로 성공적으로 치료한 예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

74세 남자가 복통을 주소로 내원하였다. 환자는 수차례 알코올성 급성 췌장염으로 입원 치료를 받은 과거력이 있었으며, 내원 2개월 전부터 복통이 재발하여 타원에서 치료하였으나 증상이 호전되지 않고 amylase와 lipase가 지속적으로 상승되어 본원에 의뢰되었다. 환자는 7년 전부터 고혈압약을 복용하고 있었고, 40년 전에 결핵성 늑막염으로 치료받은 병력과 2년 전 우측 기흉으로 입원 치료를 받은 병력이 있었다. 최근까지 50년간 매일 소주 1병씩 마셨다고 하며, 매일 1갑씩 50갑년의 흡연력을 가지고 있었다. 내원 당시 혈압과 체온 등은 정상이었고 맥박은 113회/분으로 증가되어 있었다. 계통적 문진상 최근 1년간 3-4 kg의 체중감소가 있었으며, 복통과 복부 불편감을 호소하였다. 신체검진상 만성 병색을 띠었으나 결막은 창백하지 않았고 공막의 황달 소견도 관찰되지 않았다. 복부에서도 만저지는 종괴는 없었으나 상복부에 경미한 압통이 있었다. 외래에서 추가 검사 진행 예

정 중, 내원 당일 오후에 대량의 혈변이 발생하여 본원 응급실로 다시 내원하였다. 내원 당시 신체활동 징후는 혈압

Fig. 1. Endoscopic finding. Active bleeding from ampulla of Vater can be seen.

Fig. 2. Contrast-enhanced abdominal computed tomography (CT) scan findings. A small round enhancing lesion (arrow) that is not observed in pre-enhance phase (A) is seen on arterial phase (B) and portal phase (C) along with pancreatic duct dilatation (D).

113/58 mmHg, 맥박수 90회/분, 체온 36.6°C였으며 의식은 명료하였다. 급성 병색을 보이며 결막은 창백하고 공막 황달 소견은 보이지 않았다. 복부 진찰에서 심와부 및 우상복부 압통이 있었으나 반발통은 없었고 촉진되는 종물은 없었다. 직장수지 검사에서는 검붉은 색 변이 관찰되었다. 말초혈액 검사에서 백혈구 $10,710/\text{mm}^3$, 혈색소 7.9 g/dL, 혈소판 $291,000/\text{mm}^3$ 였고 혈액응고 검사상 프로트롬빈 시간 11.8초 (INR 1.04), 활성화부분프로트롬빈 시간 31.6초였다. 생화학 검사에서 AST 20 IU/L, ALT 11 IU/L, alkaline phosphatase 55 IU/L, γ GTP 31 IU/L, 총 단백 7.0 g/dL, 알부민 4.2 g/dL, 총 빌리루빈 0.53 mg/dL, BUN 22.6 mg/dL, 크레아티닌 1.15 mg/dL, amylase 531 IU/L, lipase 1,292 IU/L였으며 종양 표지자 검사에서는 CEA 1.4 ng/mL, CA19-9 11.0 IU/mL로 정상 범위였다. 혈변의 원인을 찾기 위해 시행한 대장내시경 검사에서 대장 전장에 걸쳐서 선홍혈이 관찰되었으나 출혈 의심 병소는 관찰할 수 없었다. 상부위장관내시경 검사에서 십이지장 제2부의 주유두 개구부 주변에서 선홍혈이 관찰되었다(Fig. 1). 복부 전산화단층촬영에서는, 췌장의 석회화나 가성낭종은 관찰되지 않았으나, 췌장의 위축 및 췌장 미부 췌관의 전반적인 확장과 확장된 췌관의 기시부에 위치한 약 0.8 cm 크기의 조기 조영 증강되는 병변이 관찰되었다(Fig. 2). 반복되는 급성 췌장염으로 인하여 가성동맥류가 발생하고, 이 가성동맥류에서 출혈이 일어나 주유두부를 통해 많은 양의 출혈이 있었다고 판단되어 진단 및 치료를 위해 혈관조영술(angiography)을 시행하였다. 복강동맥(celiac trunk) 조영술에서 조영 증강되는 결절성 병변이 확인되었으나(Fig.

Fig. 3. Celiac trunk angiography. A nodular enhancing lesion suggesting pseudoaneurysm is noted in the vicinity of the celiac trunk and splenic artery (arrow).

3), 선택적 비장동맥, 상장간막동맥, 위동맥, 위십이지장동맥, 뒤췌장동맥 등의 조영술에서 가성동맥류에 피를 공급하는 동맥을 찾을 수 없었다. 정확한 기시 혈관을 확인할 수 없어 색전술을 시행하기 어려운 상태였기 때문에 수술적 치료를 시행하기로 하였다. 개복을 한 후 췌관을 따라 절개한 결과 작은 팔알 크기의 동맥류가 확장된 췌관의 기시부에서 관찰되었다(Fig. 4). 췌관의 불규칙한 협착 및 확장이 관찰되어 동맥류 절찰술만 시행할 경우 췌관 협착으로 인한 합병증이 다시 발생할 것으로 판단되어 원위부 췌장 절제술 및 비장 절제술을 시행하였다. 절제된 췌장의 크기는 $8.5 \times 3.5 \times 1.7$ cm, 무게는 49 grams이었으며 외형적 이상 소견은 보이지 않았다. 절단면에서 원위부 췌관의 확장과 국소적 출혈 및 혈전

Fig. 4. Intra-operative gross finding. A small red bean-shaped pseudoaneurysm (arrow) was observed when incision was made along the dilated pancreatic duct.

Fig. 5. Longitudinal section of resected distal pancreas. Thrombosed nodular blood vessel is seen within the dilated pancreatic duct (arrow).

을 동반한 췌관내 혈관 확장을 관찰할 수 있어 췌관내 가성동맥류 파열에 합당한 소견을 보였다(Fig. 5). 환자는 수술 후 합병증 없이 증상 호전되어 퇴원하였으며 외래에서 추적관찰 중이다.

고 찰

상부위장관 출혈의 드문 원인 중 하나인 hemosuccus pancreaticus는 췌관을 통한 십이지장 유두부로의 활동성 출혈을 나타내는 증후군으로 1931년 Lower와 Farrell에 의해 처음 보고되었고, 1970년에 Sandblom⁷이 hemosuccus pancreaticus라고 명명하며 널리 알려지게 되었다. 가장 흔한 원인은 만성 췌장염에 동반된 비장 동맥의 가성동맥류 파열 때문인데 그 외에도 외상성 또는 동맥경화성 동맥류 파열, 동정맥 기형, 췌장암 등에 의해서도 발생할 수 있다.⁸ 가성동맥류는 췌장염 환자의 3.5-10%에서 발생하며 파열을 통한 출혈은 흔하지 않으나 발생 시에는 가성낭종내 국한되거나 췌관을 통해 십이지장으로 출혈될 수 있고, 인접 위장관, 복강 또는 후복막 출혈 등 다양하게 발현될 수 있다.⁹ 위장관 출혈로 나타날 경우에는 반복적인 소량 출혈 또는 갑작스런 대량 출혈이 모두 가능하다. 대개의 경우 출혈이 간헐적으로 반복되어 내시경적 진단이 쉽지 않을 수 있다. 이는 췌관이나 가성낭종 내로 들어간 혈액이 혈전을 형성하여 출혈을 일시적으로 멈추게 하는 것으로 추정된다.

임상적으로 복통, 혈중 amylase 상승과 함께 위장관 출혈이 발생할 경우 hemosuccus pancreaticus의 가능성을 생각해 볼 수 있다. 췌장염 병력이 있거나 현재 췌장염이 동반된 환자에서 복통과 위장관 출혈이 있는 경우 더욱 의심을 갖고 주의 깊은 병력 청취와 검사를 시행하여 빨리 진단하려는 노력이 필요하다. 내시경 검사를 통하여 다른 원인에 의한 위장관 출혈을 감별한 후 복부 전산화단층촬영과 혈관조영술을 통해 가성동맥류를 진단할 수 있는데 해부학적인 분포 등을 파악하고 치료방침을 결정하는 데에는 혈관조영술이 더 유용하다.^{10,11} 복부 전산화단층촬영에서 가성동맥류 내에 혈전이 차있는 경우 조영이 잘 되지 않는 불균일한 낭성 종괴로 보여 가성낭종의 감염에 의한 변성된 구조물로 오인될 수 있으므로 주의를 요한다.

가성동맥류의 발생 위치는 가장 인접한 비장동맥에서 주로 호발하며 위십이지장동맥, 췌장십이지장동맥, 위동맥 등에서 발생하나 췌장 효소와 접하는 어느 혈관이라도 발생할

수 있다. 국내에서 가성동맥류 파열에 의한 췌관을 통한 위장관 출혈이 보고된 바 있으나³⁻⁶ 이번 증례에서와 같이 췌관 내로 노출된 가성동맥류 파열에 의한 hemosuccus pancreaticus 증례 보고는 없다. 이 증례의 경우 복강동맥 혈관조영술 시행 시에는 병변이 관찰되었으나 이후 다양한 접근 방법으로 선택적 동맥조영술을 시행하였지만 정확한 출혈 병소와 기시 혈관을 확인하기 어려웠다. 여러 분지 혈관의 혈류를 공급받는 소동맥에서 가성동맥류가 발생하였을 때, 조영제를 투여한 혈관으로의 혈류가 일시적으로 감소하며 다른 분지 혈관을 통한 혈류가 우세하게 되어 가성동맥류로 조영제가 들어가지 않는 경우 혹은 혈전 형성이나 조영제 투여 후의 혈관 연축 반응 때문에 조영 증강되지 않았을 가능성 등을 생각해 볼 수 있다.

가성동맥류 치료는 크게 수술적인 방법과 혈관조영술을 이용한 색전술 두 가지 방법이 있다. 최근에는 색전술이 어렵거나 실패한 경우에 경피적으로 또는 내시경 초음파 유도하에 경벽적으로 병변에 직접 트롬빈을 투여하는 방법도 보고되고 있다.^{12,13} 동맥색전술의 경우 드물지만 시술 후 췌장농양, 비장 등 주위 장기의 경색, 색전술 도중 동맥류 파열, 재출혈 등의 합병증이 있을 수 있으므로 주의하여야 한다.¹⁴ 혈관색전술에 실패하였거나 수술적 배액이 동시에 필요한 경우, 그리고 본 증례에서와 같이 혈관조영술로 가성동맥류가 확인되었으나 소분지 혈관에서 발생하여 기시 혈관이 정확히 확인되지 않는 경우 등에 있어서는 수술을 시행하게 된다. 수술은 혈관 결찰술 또는 췌장절제술, 경우에 따라 비장절제술 등을 시행할 수 있으며 가성동맥류의 위치가 췌장의 체부나 미부에 있는 경우가 췌장의 두부에 있는 경우보다 사망률이 낮다.^{2,15}

만성 췌장염의 합병증으로 발생하는 가성동맥류는 증상 및 임상양상이 다양하게 나타날 수 있다. 간헐적 소량 출혈로 발현될 경우 발견하기 어려운 경우가 있으며, 때로는 복통과 함께 다량의 위장관 출혈이 발생하기도 한다. 따라서 만성 췌장염 환자에서 원인을 알 수 없는 빈혈이 동반되거나 복통이 심해질 경우 당장 뚜렷한 출혈 소견이 없더라도 가성동맥류의 가능성을 의심해 보아야 한다. 췌장염에서 동맥류는 주로 가성낭종 내에서 발생하는 것으로 보고되고 있지만, 본 예에서와 같이 췌관 내에서도 발생할 수 있음을 항상 염두에 두어야 할 것이다.

요약

본 증례는 췌장 가성동맥류가 췌관 내로 노출되어 있던 드문 경우로, 소분지 혈관에서 발생하여 혈관조영술로 기시 혈관 확인 및 색전술이 어려워 수술적 치료가 필요했던 점에서 기존에 보고되었던 증례들과 차이가 있어 보고한다.

국문 색인: 췌장염, 가성동맥류, 췌관 출혈, 혈관조영술, 췌장절제술

Conflicts of Interest

The author has no conflicts to disclose.

REFERENCES

1. Fazel I, Soleimani HA, Fallah S, et al. Hemosuccus pancreaticus in a patient with celiac trunk aneurysm. *Arch Iranian Med* 2008;11:658-661.
2. Clay RP, Farnell MB, Lancaster JR, Weiland LH, Gostout CJ. Hemosuccus pancreaticus. An unusual cause of upper gastrointestinal bleeding. *Annals of Surgery* 1985;202:75-79.
3. Park JB, Jeong JP, Kim TH, et al. A Case of Hemosuccus Pancreaticus Showing Active Bleeding from the Ampulla of Vater. *Chonnam Medical Journal* 2005;41:228-232.
4. Cho YH, Kwon C-I, Jin SM, et al. A Case of Hemosuccus Pancreaticus Associated with Pseudoaneurysm of Splenic Artery. *The Korean Journal of Pancreas and Biliary Tract* 2015;20:46-50.
5. Son HB, Moon YS, Yang JH, et al. A Case of Hemosuccus Pancreaticus Showing Active Bleeding from the Ampulla of Vater. *Korean Journal of Gastrointestinal Endoscopy* 2004;28:267-272.
6. Kim JH, Kong H, Jo NY, et al. Two Difficultly Diagnosed Cases with Pseudoaneurysm in Chronic Pancreatitis Pseudoaneurysms Identified Inadvertently during Percutaneous Drainage and Hemosuccus Pancreaticus. *Korean Journal of Gastrointestinal Endoscopy* 2001;23:263-268.
7. Sandblom P. Gastrointestinal hemorrhage through the pancreatic duct. *Annals of Surgery* 1970;171:61-66.
8. Sakorafas G, Sarr M, Farley D, Que F, Andrews J, Farnell M. Hemosuccus pancreaticus complicating chronic pancreatitis: an obscure cause of upper gastrointestinal bleeding. *Langenbeck's Archives of Surgery* 2000;385:124-128.
9. Kumar B, Jha S. Hemosuccus pancreaticus due to rupture of a gastroduodenal artery pseudoaneurysm. *Hospital Physician* 2007;43:61-64.
10. steckman ML, Dooley MC, Jaques PF, Powell DW. Major gastrointestinal hemorrhage from peripancreatic blood vessels in pancreatitis. *Digestive Diseases and Sciences* 1984;29:486-497.
11. Adams DB, Zellner JL, Anderson MC. Arterial hemorrhage complicating pancreatic pseudocysts: role of angiography. *Journal of Surgical Research* 1993;54:150-156.
12. Pacheco JM, Moreno ST, Moreno RF, Guillén RM. Pancreatic tail pseudoaneurysm: percutaneous treatment by thrombin injection. *Radiologia* 2014;56:167-170.
13. Roach H, Roberts S, Salter R, Williams I, Wood A. Endoscopic ultrasound-guided thrombin injection for the treatment of pancreatic pseudoaneurysm. *Endoscopy* 2005;37:876-878.
14. Maleux G, Van Steenberghe W, Stockx L, Vanbeckevoort D, Wilms G, Marchal G. Multiple small pseudoaneurysms complicating pancreatitis: angiographic diagnosis and transcatheter embolization. *European Radiology* 2000;10:1127-1129.
15. Bresler L, Boissel P, Grosdidier J. Major hemorrhage from pseudocysts and pseudoaneurysms caused by chronic pancreatitis: surgical therapy. *World Journal of Surgery* 1991;15:649-652.