

소아 가성비장동맥 파열의 동맥색전술 치험 1예

연세의대 외과학교실 소아외과, 진단방사선과*

한석주 · 이도연* · 한애리 · 최기홍 · 오정탁 · 최승훈 · 황의호

= Abstract =

Arterial Embolization for the Ruptured Splenic Artery Pseudoaneurysm in a Child

Seok-Joo Han, M.D., Do-Yun Lee*, M.D., Ai-Ri Han, M.D., Gi-Hong Choi, M.D., Jung-Tak Oh, M.D., Seung-Hoon Choi, M.D., Eui-Ho Hwang, M.D.

Division of Pediatric Surgery, Department of Surgery, and Department of Diagnostic Radiology*, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Pseudoaneurysm of the splenic artery may arise from a vascular erosion by a surrounding inflammatory processes in acute and chronic pancreatitis. Rupture of the pseudoaneurysm may threaten the patient's life. Conservative management for massive hemorrhage may cause 100 percent mortality and even with prompt therapy there is a high mortality. Preoperative detection of bleeding source is desirable because of the difficult identification of the bleeding site at laparotomy. Angiographic identification and embolization of the hemorrhagic vessels in selected cases may obviate the risk of urgent surgery. The authors have recently managed a case of ruptured splenic artery pseudoaneurysm combined with a pancreatic pseudocyst in a 6 years old boy. A bolus enhanced CT scan and angiography confirmed the diagnosis. We managed this child successfully with the urgent transcatheter arterial embolization followed by elective surgery.

Index Words : Pancreatitis, Pancreatic pseudocyst, Pseudoaneurysm of splenic artery, Transcatheter arterial embolization

서 론

만성 췌장염이나 췌장 가성낭포(pancreatic pseudocyst)를 가진 환자에서 출혈은 심각한 합병증의 하나이다. 출혈의 원인 중 하나는 췌장효소가 동맥 벽을 약화시켜 생긴 가성동맥류가 터져서 일어나

는 출혈이 있으며 만성췌장염 환자의 약 2-10%에서 일어난다^{1,3}. 만성 췌장염이나 췌장 가성낭포와 동반된 가성동맥류가 터져서 일어나는 출혈은 대량 출혈인 경우가 많으며, 신속한 조치를 취하더라도 사망률이 매우 높고 보존적 치료를 시행할 경우에는 모두 사망하게 된다⁴. 이런 높은 사망률의 원인

Correspondence : Seok-Joo Han, M.D., Division of Pediatric Surgery, Department of Surgery, Yonsei University College of Medicine, 132 Shinchon-dong, Seodaimoon-ku, Seoul 120-140, Korea

본 논문은 2000년도 6월 16-17일 대구에서 개최된 제 16회 대한 소아외과학회 춘계학술대회에서 구연되었음.

은 동맥성 대량 출혈 외에 정확한 출혈 부위의 확인을 하지 못하고 수술에 임하는 경우가 많으며, 비록 가상동맥류와 출혈 부위를 수술전 진단하고 수술에 임하더라도 췌장염으로 인한 심한 주위 조직의 염증으로 수술 중 출혈 부위의 확인과 지혈이 기술적으로 매우 어렵기 때문이다. 혈관촬영은 가상동맥류 자체의 진단과 출혈부위를 정확히 확인할 수 있으며 동시에 신속하고 간단하고, 효과적으로 경도관 동맥색전술(transcatheter arterial embolization)로 효과적인 지혈도 할 수 있는 장점이 있어 최근 가상동맥류의 진단과 치료에 있어서 중요성이 강조되고 있다^{5,7}. 본 증례 발표의 목적은 소아연령에서는 매우 드문 질환이기는 하나 췌장염 혹은 췌장 가상낭포와 동반된 가상동맥류의 진단과 치료에 있어서 경도관 동맥색전술의 유용성을 소개하기 위해서이다.

증 례

6세 남아가 6주간의 우측 흉통, 기침 그리고 고열을 주소로 타 병원에 내원하였다. 환자는 특별한 과거력이나 외상의 병력은 없었다. 타 병원에서 시행한 흉부 단순 촬영 상 다량의 우측 흉막삼출이 있어 흉강천자를 시행했는데 이때 약 250 mL의 초콜렛 색깔의 삼출액이 나왔다고 한다. 삼출액에서 세균, 결핵균은 동정되지 않았으며 악성 세포도 관찰되지 않았다. 삼출액의 췌장효소에 대한 검사는 시행되지 않았다. 몇 번의 흉강천자에도 불구하고 흉막삼출액이 계속 고여 우측 흉관삽입술을 시행하였다고 한다. 결핵성 흉막삼출 의심 하에 일차적으로 항결핵제로 치료하던 중 흉관에서 출혈이 계속되었으며(150-180 mL/day) 전원 하루 전에는 흉관에서 약 600 mL의 대량 출혈이 있어 본원으로 전원 되었다. 전원 후 폐혈관 기형 의심 하에 흉부 전산화 단층촬영을 시행한 결과 흉강 내에 특별한 혈관기형은 보이지 않았으나 후종격동에 낭종성 종괴가 관찰되었다. 이 낭종성 종괴는 우측 횡경막 다리를 따라 횡경막을 통과하여 후복강으로 연장되는 것이 관찰되었다. 흉부 전산화 단층촬영 중 얻은 상복부 필름에서 우연히 췌장체부 주위에 약 3 cm 크기의 또 다른 낭종성 종괴가 관찰되었다. 이 종괴는 복강동맥이 간동맥과 비장동맥으로 갈라지는 부위에서 관찰되었다. 복부의 낭종성 종괴를 평가하기 위하여 시행한 도플러 초음파상 췌장의 부종 소견이 보이면서 종괴는 무반향성 분엽상

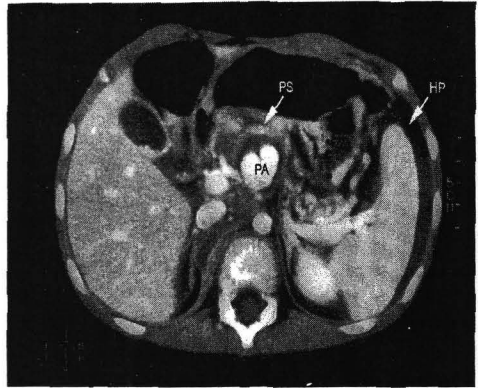


Fig. 1. Bolus enhanced abdominal CT, revealing bilobed pseudoaneurysm (PA) of the splenic artery in a small pancreatic pseudocyst (PS) and hemoperitoneum (HP).

종괴(anechoic lobulated mass)로 관찰되며 도플러 상 종괴 내부에 혈류가 관찰되어 췌장 가상낭포와 이로 인한 가상동맥류가 의심되었다. 이 때 시행한 혈청 아밀라제는 45 U/dL(정상, 60-180 U/dL), 혈청 리파제는 110 IU/L(정상, 0-190 IU/L)로 정상 소견을 보였다. 초음파 시행 다음날 환자는 심한 복부 통증을 호소하더니 갑자기 창백해지고 혈압이 저하되면서 의식이 없어지고 복부 팽창이 관찰되었다. 응급으로 시행한 복부 전산화 단층촬영(bolus enhanced abdominal CT)에서 비장동맥 기시부 앞쪽에 약 3 cm의 낭성 구조물 안에 약 2 cm 정도의 종괴가 동맥기에 음영증대(arterial phase에 enhancement)되고 있었으며 혈복강의 소견을 보였다(그림 1). 이상의 소견을 종합해 췌장 가상낭포 안에 생긴 비장동맥의 가상동맥류 파열을 의심하여 즉시 복강동맥 촬영을 시행하였다. 복강동맥 촬영상 비장동맥의 가상동맥류 파열이 확진 되었으며 즉시 미세 코일(microcoil)로 경도관 비장동맥색전술을 비장동맥 기시부에 시행하였다(그림 2). 환자는 이후 상태가 호전되어 췌장 가상낭포에 대한 낭포공장문합술을 시행 받았으며 이때 가상낭포액의 아밀라제는 27,835 U/dL이었고 리파제는 200,000 IU/L 이상이었다. 환자는 낭포공장문합술 후 흉막삼출이 줄어 흉관 제거 후 퇴원하여 현재 3년의 추적 관찰 기간 동안 특별한 이상 없이 성장하고 있다.

고 찰

만성 췌장염으로 인한 가상동맥류의 빈도는 보

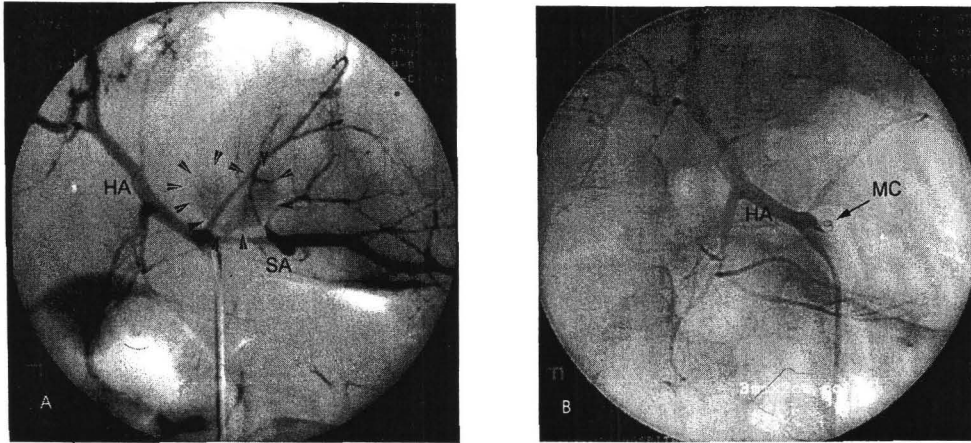


Fig. 2. Celiac angiography, before (A) and after (B) successful microcoil embolization of a pseudoaneurysm of the splenic artery (arrowheads; pseudoaneurysm, HA; hepatic artery, SA; splenic artery, MC; microcoil).

고자마다 다르기는 하나 성인 환자의 약 10-17%의 빈도를 보이고 있으나^{8,9} 소아에서의 매우 경험하기 힘든 질환이다. 이때 생기는 가성동맥류는 췌장 주위의 동맥에 주로 생기게 되는데 비장동맥이 가장 흔하게 생기는 동맥이며 그 외 췌십이지장동맥, 위십이지장동맥 등에 생긴다¹.

췌장염에서 가성동맥류가 생기는 기전은 염증이 있는 췌장에서 나오는 췌장효소, 특히 elastase가 동맥벽을 자가소화하게 되고 동맥벽이 약화되면서 혈관 주위로 혈액이 누출되면서 생기게 된다⁴. 만약 가성동맥류가 서서히 커지면 결국은 파열하게 되고 출혈된 혈액은 소화관, 췌담도관, 복강, 후복강 등으로 누출되면서 다양한 증세를 일으키게 된다. 만성췌장염이 있는 환자에서 다음과 같은 증세가 있는 경우에는 가성동맥류의 파열로 인한 출혈을 의심하여야 한다. 첫째 급성 복통이 있는 경우, 둘째 혈색소가 감소하면서 활력 징후 상 출혈이 의심되는 경우, 셋째 소화성 궤양과 같이 특별한 원인이 없이 소화관 출혈이 있는 경우 등이다. 이때 일어나는 출혈은 대량의 출혈이 일어나는 것이 보통이다. 그러나 때에 따라서는 짧은 시간동안 일시적인 소량의 출혈이 일어났다가 멈추는 현상이 반복적으로 일어나기도 한다고 한다¹⁰. 이런 사실을 염두에 두고 본 증례를 살펴보면 초기에 흉막삼출액이 혈액성이었으며 흉관으로 출혈이 계속되다가 전원 직진 흉관으로 약 600 mL의 대량 출혈이 일어난 점을 설명할 수 있다고 생각한다.

본 증례의 초기 증상은 복부 증세 없이 우측 흉통, 고열, 기침, 우측 흉막삼출 등 흉부 증세였다.

이는 췌장 가성낭포가 췌혈강누공의 형태로 나타날 수 있다는 사실로써 설명되어 진다. 췌혈강누공은 매우 드문 췌장 가성낭포의 한 형태로 췌장액의 누출이 후복강을 통하여 횡경막을 통과하여 흉강에서 가성낭포를 형성하는 경우를 말한다¹¹. Cameron 등¹²은 췌혈강누공의 발생은 췌장의 염증보다는 췌관의 파열로부터 시작한다고 설명하고 있다. 이때 환자는 복부 증세가 전혀 없이 흉부의 증세만을 호소하는 경우가 많다고 한다. 췌장을 포함한 복부장기에는 염증이 없거나 심하지 않아 환자가 복부 증세 없이 흉부의 증세만을 호소할 수 있다고 하였다. 만약 췌관의 파열된 부분이 앞쪽이라면 복수가 생기게 되고 파열된 부분이 뒤쪽이라면 후복강으로 진행하여 위쪽으로는 횡경막을 통과하여 중격동에 가성낭포를 형성하면서 흉막삼출액이나 심막삼출액을 형성하게 되고 아래쪽으로 진행되는 경우에는 골반강 내에 가성낭포를 형성할 수 있다고 설명하고 있다. 저자는 본 증례가 초기에는 췌장액의 누출이 췌혈강누공을 통하여 흉막삼출을 일으키면서 후중격동에 췌장 가성낭포를 주로 형성하고 있는 상태에서 비장동맥의 가성동맥류의 출혈이 췌혈강누공을 통하여 혈흉으로 나타난 것으로 추측하고 있다. 이런 추측이 가능한 이유는 비록 췌혈강누공을 진단하는데 있어 중요한 흉막삼출액에 대한 췌장효소 검사를 시행하지 못하였으나 흉부 전산화 단층촬영에서 후중격동의 낭종성 종괴가 횡경막을 통과하여 횡경막 다리를 따라서 후복강으로 연결되고 있으며 (그림 1, 2) 경도관 동맥색전술 시행 후에는 혈액성 흉막삼출

액이 사라졌고, 췌장 가성낭포에 대한 수술을 시행하고 나서는 흉막삼출액이 현저히 줄어들면서 흉관을 제거할 수 있었다는 사실 등이다.

가성동맥류로부터 출혈이 있는 경우에는 37%에서 100%의 높은 사망률을 보고하고 있다^{4,10}. 이렇게 높은 사망률을 보이는 이유는 동맥성 대량 출혈로 환자가 급격히 쇼크에 빠지게 되며, 짧은 시간에 정확한 출혈 원인을 진단하지 못해 적절한 조치를 취하지 못하기 때문이다. 가성동맥류의 수술 원칙은 가성동맥류의 근위부 및 원위부 동맥을 모두 결찰하는 것이다. 그러나 수술 전 가성동맥류의 출혈을 진단하고 수술하더라도 실제로 수술이 시행 될 경우에는 췌장 주위 및 가성동맥류 주위에 심한 염증으로 실제로 이를 시행하는 것이 기술적으로 상당히 힘들다고 한다¹³⁻¹⁴. 본 증례의 경우 다행히 대량 출혈이 일어나기 전에 비장동맥의 가성동맥류를 의심하고 있는 상태였기 때문에 필요한 적절한 모든 조치가 가능하였다고 생각한다.

과거에는 초음파로 췌장 가성낭포와 동반된 가성동맥류를 진단하는데 어려움이 있었다. 그러나 최근에는 도플러 초음파를 같이 적용함으로써 초음파의 진단적 가치가 높아졌다¹⁵⁻¹⁶. 가성동맥류는 도플러 이미지 상 심장의 수축기에 혈류가 낭종으로 흘러 들어가고 이완기에는 혈류가 낭종에서 빠져나가는 특징적인 소견(*swinging blood flow*)이 있어서 가성 낭종과 쉽게 구별된다. 본 증례 역시 이런 소견을 보여서 대량 출혈 전 비장동맥의 가성동맥류를 의심하고 있었다. 또한 *bolus enhanced abdominal CT*는 특히 췌장 가성낭포와 동반된 가성동맥류를 진단하는데 있어 매우 유용하다고 한다¹⁷. 본 증례 역시 대량 출혈이 있는 즉시 이를 시행하여 조영제로 음영증대 되는 가성동맥류를 잘 관찰 할 수 있었으며 가성동맥류로부터 조영제가 누출되는 것을 확인 할 수 있었다(그림 4).

동맥 촬영술은 경도관 동맥색전술을 동시에 시행 할 수가 있어 확진과 치료에 큰 도움이 된다^{7,18}. 특히 비장은 좌위동맥, 좌위대장동맥, 그리고 후췌장동맥 등에 의한 풍부한 측부순환을 가지고 있으므로 색전 후에도 비장경색이 잘 발생하지 않고 그 기능이 보존되는 것으로 보고되고 있다¹⁹⁻²⁰. 소아의 가성동맥류 파열에서의 경도관 색전술의 의의는 즉각적인 지혈을 효과적으로 시행 할 수 있으므로 쇼크에 빠진 환자를 회복시킬 수 있고 안정된 상태에서 필요한 후속 조치가 취해 질 수 있다는 점이다. 저자들은 본 증례에서 시행한 경도관

동맥색전술의 성공이 환자의 상태를 손쉽게 빠르게 안정시킬 수 있었고 이로 인하여 환자의 생명을 구할 수 있었다고 생각한다. 경도관 동맥색전술의 성공률은 보고자마다 다르나 67-100%의 성공률을 보이고 있다^{7,18,21-24}. 최근 일부에서는 경도관 동맥색전술 자체가 가성동맥류의 근본치료로도 이용될 수 있다고 주장하고 있다. 그러나 Boudghene 등²², Lee 등²⁵이 보고한 바에 따르면 비록 처음 색전술이 성공하였더라도 측부순환으로 인한 혈류의 재개통으로 출혈이 일어 날 수 있다고 보고하고 있다. 특히 췌장 가성낭포가 계속 진행되는 병이라는 사실을 생각하면 경도관 동맥색전술은 빠르고 효과적으로 지혈을 하기 위한 일시적인 조치라고 생각하여야 하며 췌장 가성낭포에 대한 수술이 뒤따라야 하겠다. 본 증례는 췌장 가성낭포에 대해 낭포공장문합술을 시행하고 현재 3년간의 추적기간 동안 재출혈이나 췌장 가성낭포로 인한 특별한 문제없이 성장하고 있다.

결론적으로 본 증례는 췌장 가성낭포가 초기에는 췌홍강누공의 형태로 발병하면서 비장동맥의 가성동맥류의 출혈이 중도의 혈액성 흉막삼출로 나타나다가 후에 대량의 복강내 출혈로 나타났다고 생각한다. 췌장 가성낭포에서 대량 출혈이 있는 경우 반드시 가성동맥류 파열의 가능성을 생각하여야 하며, 가성동맥류 파열이 확인 될 경우에는 적극적으로 경도관 동맥색전술을 시행하여 환자를 안정시킨 후 췌장 가성낭포에 대한 추후 치료를 함으로써 생존율을 높일 수 있을 것이라고 생각한다.

참 고 문 헌

1. Gadacz TR, Trunkey D, Kieffer RF: Visceral vessel erosion associated with pancreatitis. *Arch Surg* 113:1438-1440, 1978
2. Wolstenholme JT: Major gastrointestinal haemorrhage associated with pancreatic pseudocysts. *Am J Surg* 127:377-381, 1974
3. Eckhauser FE, Stanley JC, Zelenock GB: Gastroduodenal and pancreaticoduodenal artery pseudoaneurysm: a complication of pancreatitis causing spontaneous gastrointestinal haemorrhage. *Surgery* 88:335-344, 1980
4. Stable BE, Wilson SE, Debas HT: Reduced mortality from bleeding pseudocyst and pseud-

- aneurysm caused by pancreatitis. Arch Surg 118:45-51, 1983
5. Huizinga WKJ, Kalideen JM, Bryer JV, Bell PSH, Baker LW: Control of major haemorrhage associated with pancreatic pseudocyst by transcatheter arterial embolization. Br J Surg 71:133-136, 1984
 6. Baker KS, Tisnado J, Cho SR, Beachley MC: Splanchnic artery aneurysm and pseudoaneurysm: transcatheter embolization. Radiology 163:135-139, 1987
 7. 강인구, 이도연, 김영주, 엄동호, 장영심, 박시균, 광규성, 권택상, 홍인수: 내장 가성동맥류의 경도관 색전술. 대한방사선의학회지 39:685-692, 1998
 8. White AF, Baum S, Buranasiri S: Aneurysm secondary to pancreatitis. Am J Roentgenol 127:393-396, 1976
 9. Kiviluoto T, Kivisaari L, Kivilaakso E, Lempinen M: Pseudocyst in chronic pancreatitis. Surgical results in 102 consecutive patients. Arch Surg 124:240-243, 1989
 10. Perrot M, Berney T, Bühler L, Delgadillo X, Mentha G, Morel P: Management of bleeding pseudoaneurysm in patients with pancreatitis. Br J Surg 86:29-32, 1999
 11. Pottmeyer III EW, Frey CF, Matsuno S: Pancreaticopleural fistulas. Arch Surg 122: 648-654, 1987
 12. Cameron J, Kuffer R, Anderson W: Internal Pancreatic fistulas: Pancreatic ascites and pleural effusions. Ann Surg 184:587-593, 1976
 13. el Hamel A, Parc R, Adda G, Bouteloup PY, Huguet C, Malafosse M: Bleeding pseudocysts and pseudoaneurysms in chronic pancreatitis. Br J Surg 78: 1059-1063, 1991
 14. Bender JS, Bouwman DL, Levison MA, Weaver DW: Pseudocysts and pseudoaneurysms: Surgical strategy. Pancreas 10:143-147, 1995
 15. Hwang YT, Chen CH, Wang HP, Yang PM, Yu SC, Wu CT, Wang TH, Lin JT: Hemosuccus pancreaticus from a splenic artery pseudoaneurysm: an unusual cause of upper gastrointestinal bleeding. J Formos Med Assoc 95:247-251, 1996
 16. Goletti O, Ghiselli G, Lippolis PV, Di Sarli M, Macaluso C, Pinto F, Chiarugi M, Cavina E: Intrasplenic posttraumatic pseudoaneurysm: echo color doppler diagnosis. J Trauma-Inj Inf Crit Care 41: 542-545, 1996
 17. Marshall GT, Howell DA, Hansen BL, Amberson SM, Abourjaily GS, Bredenberg CE: Multidisciplinary approach to pseudoaneurysm complicating pancreatic pseudocysts. Impact of pretreatment diagnosis. Arch Surg 131: 278-283, 1996
 18. Gambiez LP, Ernst OJ, Merlier OA, Porte HL, Chambon JP, Quandalle PA: Arterial embolization for bleeding pseudocyst complicating chronic pancreatitis. Arch Surg 132: 1016-1021, 1997
 19. Hagiawara A, Yukioka T, Ohta S, Nitatori T, Matsuda H, Shimazaki S: Nonsurgical management of patients with blunt splenic injury: efficacy of transcatheter arterial embolization. AJR 167:159-166, 1996
 20. Sclafani SJA, Shaftan GW, Scalea TM, Patterson LA: Non-operative salvage of CT-diagnosed injury; utilization of angiography for triage and embolization for hemostasis. J Trauma 39:818-827, 1995
 21. Boudghene F, L'Hermine C, Bigot JM: Arterial complications of pancreatitis: diagnostic and therapeutic aspects in 104 cases. J Vasc Interv Radiol 4:551-558, 1993
 22. Waltman AC, Luers PR, Athanasoulis CA, Warshaw AL: Massive arterial hemorrhage in patients with pancreatitis. Complementary roles of surgery and transcatheter occlusive techniques. Arch Surg 121: 439-443, 1986
 23. Mandel SR, Jaques PF, Sanofsky S, Mauro MA: Nonoperative management of peripancreatic arterial aneurysm. A 10-year experience. Ann Surg 205:126-128, 1987
 24. Huizinga WKJ, Kalideen JM, Bryer JV, Bell PS, Baker LW: Control of major haemorrhage associated with pancreatic pseudocyst by transcatheter arterial embolization. Br J Surg 71:133-136, 1984

25. Lee MJ, Saini S, Geller SC, Warshaw AL,
Mueller PR: Pancreatitis with pseudoaneurysm

formation: a pitfall for the interventional radiologist. Am J Roentgenol 156:97-98, 1991