

## Hemosuccus Pancreaticus 1예

아주대학교 의과대학 소화기내과학교실

유은수 · 유병무 · 유은정 · 윤소영 · 양민재 · 황재철 · 김진홍

### Recurrent Upper Gastrointestinal Hemorrhage due to Hemosuccus Pancreaticus from True Splenic Artery Aneurysm

Eun Soo Yoo, Byung Moo Yoo, Eun Jung Yoo, So Young Yoon, Min Jae Yang, Jae Chul Hwang, and Jin Hong Kim

*Department of Gastroenterology, Ajou University School of Medicine, Suwon, Korea*

Hemosuccus pancreaticus, defined as bleeding from the papilla of Vater via the pancreatic duct, is a rare cause of recurrent upper gastrointestinal bleeding. We report the case of a 67-year-old man with recurrent gastrointestinal bleeding, who was subsequently diagnosed with hemosuccus pancreaticus caused by rupture of a true splenic artery aneurysm. The patient had chronic pancreatitis after considerable delay and unnecessary surgical small bowel exploration. The patient was cured with distal pancreatectomy because concomitant arcuate ligament syndrome precluded the angiographic approach via the celiac trunk, and tortuous dilatation of the distal pancreatic duct could not exclude the main duct type of intraductal papillary mucinous neoplasm (IPMN). In the surgical specimen, the pancreatic duct contained a hematoma and was lined by normal epithelium, indicating rupture of the splenic artery aneurysm that bled into the pancreatic duct. (Korean J Med 2016;90:421-426)

**Keywords:** Chronic pancreatitis; Gastrointestinal hemorrhage; Splenic artery aneurysm

## 서 론

상부위장관 출혈은 샘장자 결이근(treitz ligament) 상부의 출혈로, 약 8%에서는 명확한 원인을 찾지 못하는 것으로 알려져 있다[1]. Hemosuccus pancreaticus (HP)는 상부위장관 출혈의 매우 드문 원인 중 하나로 출혈이 췌관을 통해 십이지장 주 유두부로 배출되는 것을 의미한다. 가장 흔한 경우는 급성 재발성 췌장염이나 만성 췌장염 이후 발생한 비장동맥의 가

성동맥류가 췌관 내에서 파열되어 발생하는 것으로 알려져 있다. 이외에도 췌장 주변 다른 동맥의 가성동맥류나 췌석, 췌장가성낭종 및 동정맥기형과 연관되어 발생할 수도 있다[2,3]. 기존의 국내외 보고와는 달리 저자들은 만성 음주력 없이 비장동맥의 진성동맥류에 의하여 발생한 HP 1예를 경험하였으며, 당시 활꼴인대증후군에 의한 복강동맥 협착이 동반되어 색전술은 시행할 수 없어, 원위부 췌장절제술을 시행하였고, 최종 병리학적 소견을 확인하였기에 보고하는 바이다.

Received: 2015. 11. 5

Revised: 2015. 12. 22

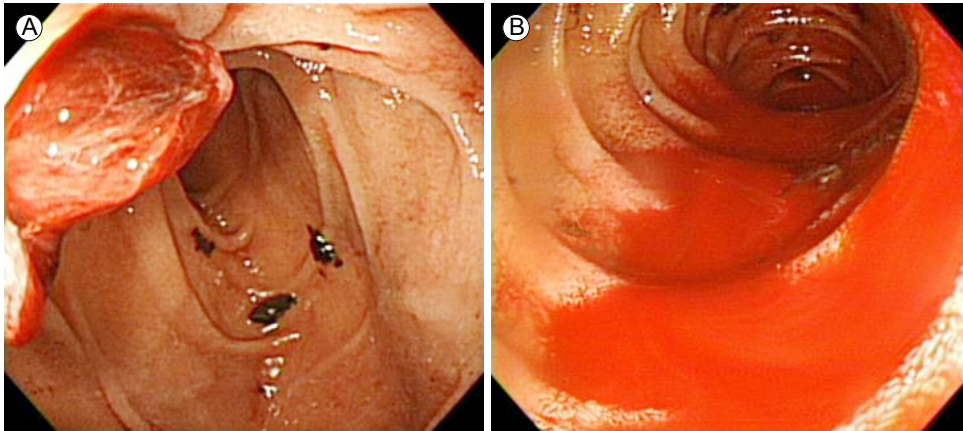
Accepted: 2016. 2. 29

Correspondence to Byung Moo Yoo, M.D., Ph.D.

Department of Gastroenterology, Ajou University School of Medicine, 164 Worldcup-ro, Yeongtong-gu, Suwon 16499, Korea  
Tel: +82-31-219-5488, Fax: +82-31-219-5999, E-mail: ybm6403@gmail.com

Copyright © 2016 The Korean Association of Internal Medicine

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 noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.



**Figure 1.** Esophagogastroduodenoscopy findings. (A) A large blood clot adherent to the periampullary area is shown. (B) Fresh blood gathered in the duodenal descending portion.

## 증 례

67세 남자가 반복되는 흑색변과 어지럼증으로 내원하였다. 약 4년여 전부터 간헐적으로 수십 차례 동일한 증상이 발생하였고 내원 1개월 전 상하부 위장관내시경 및 캡슐내시경, 복부 전산화단층촬영 및 위장관 출혈스캔 검사를 시행하였으나 명확한 원인을 찾지 못하여 시험적 개복술을 통해 소장 출혈 여부를 확인하고자 외과에 의뢰되었다. 당뇨병로 약물 치료 중이었고 가족력에 특이사항은 없었으며, 음주와 흡연은 하지 않았다. 계통적 문진에서 발열, 오한은 없었으나, 어지럼증과 흑색변을 호소하였다. 생체활력 징후는 정상이었으며, 의식이 명료하였으며 결막은 창백하였고 공막황달은 관찰되지 않았다. 신체 검사에서 복부에 압통 및 반발통은 없었고 장기비대의 소견이나 종괴는 촉진되지 않았으며, 직장항문수지 검사에서 흑색변이 묻어 나왔고 과산화수소에 양성 반응을 보였다. 말초 혈액 검사상 백혈구  $7,500/\text{mm}^3$ , 혈색소  $9.4 \text{ g/dL}$ , 헤마토크리트 28.9%, 혈소판  $219,000/\text{mm}^3$ 였고, 혈청 생화학 검사에서 총 빌리루빈  $0.7 \text{ mg/dL}$ , 총 단백  $6.8 \text{ g/dL}$ , 알부민  $4.5 \text{ g/dL}$ , 알칼리인산분해효소  $47 \text{ U/L}$ , 아스파르테이트아미노전달효소  $6 \text{ IU/L}$ , 알라닌아미노전달효소  $16 \text{ IU/L}$ , 크레아티닌  $0.75 \text{ mg/dL}$ , 아밀라아제  $78 \text{ U/L}$ , C-반응단백  $0.04 \text{ mg/dL}$  소견을 보였다.

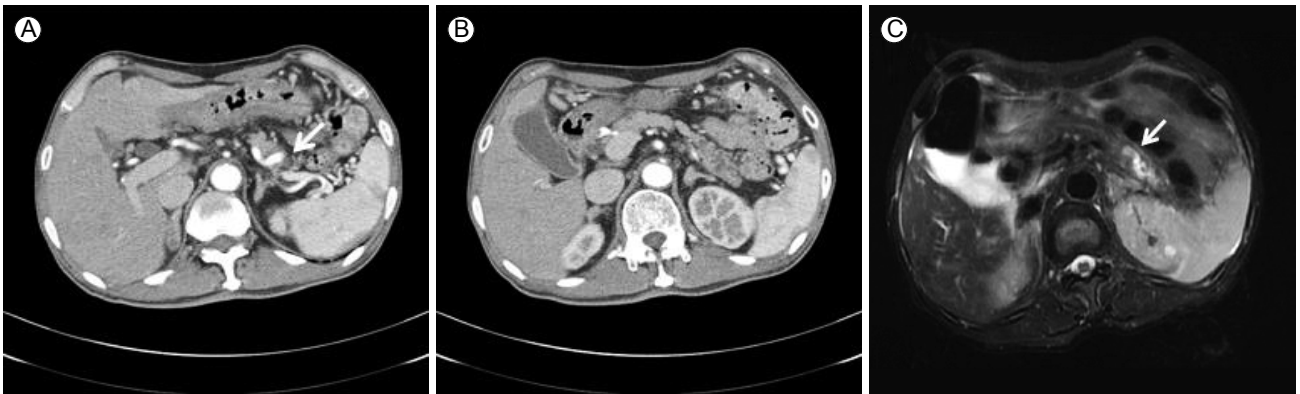
내원 2일째 환자는 외과에서 복강경 하에 소장을 확인하였고 썸창자결이근 15 cm 원위부에 약 1.5 cm 크기의 미란이 동반된 이소성 췌장 의심 병변이 발견되었다. 이 병변을 기점으로 수술실 내에서 내시경을 통해 근위 방향으로 유문까지 원위 방향으로 150 cm 하방까지 관강 내를 확인하였



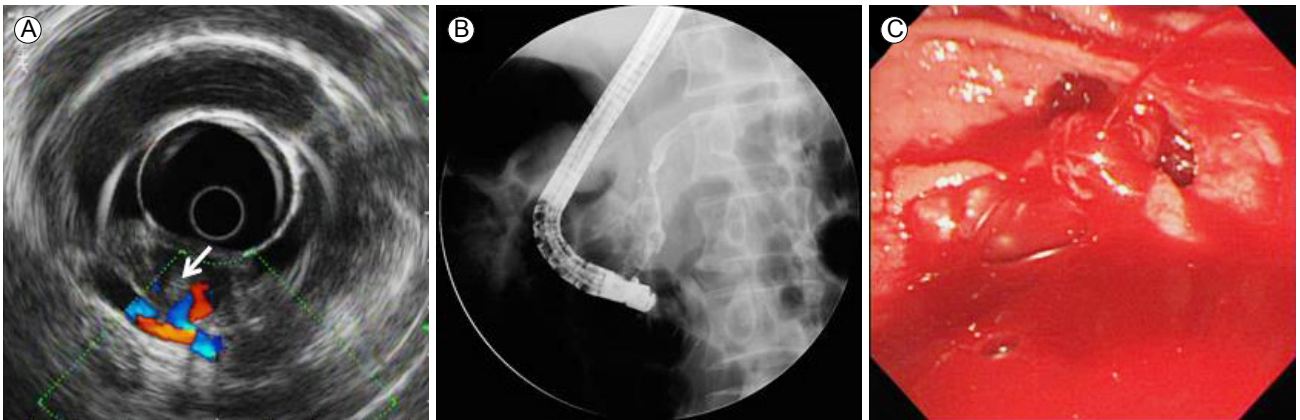
**Figure 2.** Selective angiography findings. Superior mesenteric artery (SMA) angiography was performed first because of celiac trunk stenosis associated with arcuate ligament syndrome (arrow). Extravasation was not encountered on SMA angiography.

으나 다른 출혈 병변은 없었다. 이 병소를 출혈의 원인으로 판단하고 소장 췌기절제술을 시행하였다. 환자는 이후 입원 6일째 특이 합병증 없이 퇴원하였다.

퇴원 1개월 후 환자는 흑색변으로 다시 응급실을 내원하였고, 당시 혈색소  $7.8 \text{ g/dL}$  소견이 보여 응급 내시경을 시행하였다. 내시경 검사에서 십이지장 하행부위 유두부 주위로 혈괴가 관찰되고 활동성 출혈이 의심되었다(Fig. 1). 야간에 응급으로 시행한 상부위장관내시경으로는 병소 확인 및 지혈이 어려워 클립으로 위치 표시 후 혈관조영술을 의뢰하였



**Figure 3.** Cross-sectional images from contrast-enhanced computed tomography (CT) and magnetic resonance. (A) CT. Evidence of a splenic artery aneurysm is shown. (B) CT. The distal pancreatic duct is tortuously dilated and accompanied by mild parenchymal atrophy. (C) Magnetic resonance imaging. A space-occupying lesion (arrow) at the proximal portion of the dilated pancreatic duct is shown.

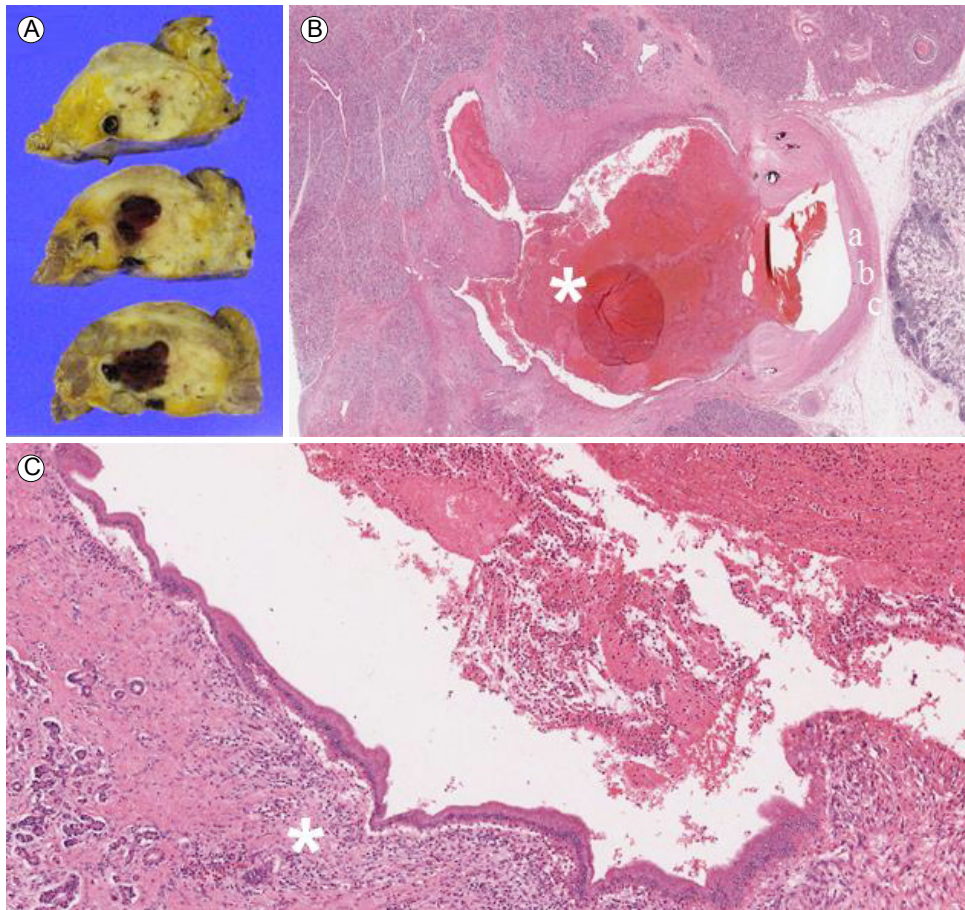


**Figure 4.** Endoscopic ultrasonography (EUS), endoscopic retrograde pancreaticography (ERP) and esophagogastroduodenoscopy (EGD) findings. (A) EUS. The splenic artery aneurysm and adjacent solid component are shown within the saccular dilated area of the pancreatic duct (arrow). (B) ERP. The pancreatic duct is diffusely dilated and amorphous filling defects are shown. (C) EGD. Spurting bleeding from the papillary orifice is shown.

다. 그러나 혈관조영술에서 활꼴인대중후군에 의한 복강동맥 협착이 있어 위십이지장동맥으로의 진입이 불가능하였고 상장간막동맥을 통해 하부 췌장십이지장 동맥을 조영하였으나 활동성 출혈이 없고 측부혈관이 많아 중재시술 없이 시술을 종료하였다(Fig. 2). 다음날 시행한 상부위장관내시경과 십이지장경을 이용한 검사에서 주 유두부 주변으로 혈괴와 출혈 소견은 관찰되지 않았으나 응급실에서 시행하였던 복부 전산화단층촬영검사에서 비장동맥류가 확인되어, 임상적으로 HP 가능성을 의심하였다(Fig. 3A). 또한 복부 전산화단층촬영 검사에서 원위부 췌관의 사행성 확장과 원위부 췌실질 위축이 관찰되었으며(Fig. 3B), 동반된 주췌관내 유두상 점액종양을 감별하기 위하여 자기공명영상 검사를 시행하였다. 자

기공명영상 T2 영상사진에서 췌장미부의 췌관확장이 관찰되고 확장된 부분의 근위부에 작은 고형 병변이 의심되어 (Fig. 3C), 악성 주췌관내 유두상 점액종양의 가능성을 높게 판단하였고 이를 확인하기 위해 다음날 내시경 초음파와 역행담췌관조영술을 시행하였다(Fig. 4A and 4B). 내시경 초음파 검사 도중 십이지장 하행 부위에서 내시경 화면이 갑자기 붉게 변하여 십이지장경으로 내시경을 변경하여 관찰하였고, 주 유두부에서 박동성으로 분출되는 출혈을 확인하였다 (Fig. 4C). 환자는 임상적으로 비장동맥류파열에 의한 HP로 진단되었다. 결국 동맥류 원위부 췌관에 주췌관내 유두상 점액종양의 가능성이 있어 원위부 췌장절제술을 시행하였다. 최종 조직 병리 소견에서 진성 비장동맥류가 췌관 내로 파열





**Figure 5.** Pathologic findings. (A) Hematoma in a sagittal section of the pancreas specimen. (B) Rupture of the splenic artery aneurysm into the pancreatic duct (asterisk), which is filled with numerous red blood cells. Three layers of aneurysmal wall were identified: tunica intima (a), tunica media (b), and adventitia (c). (C) The epithelial lining of the pancreatic duct shows no evidence of cellular dysplasia; however, chronic inflammatory cells are present in the adjacent pancreatic parenchyma (asterisk).

되어 있었고, 췌관이 확장되어 있었으며 췌관 내에 혈괴가 가득 차 있었다(Fig. 5A and 5B). 췌관 상피세포는 이형성이 없는 정상 소견이었으며, 췌실질은 만성 염증성 변화가 동반되어 있었다(Fig. 5C). 환자는 특별한 합병증 없이 퇴원하였으며, 재출혈의 징후 없이 외래에서 추적 관찰 중이다.

## 고 찰

HP는 췌관을 통하여 주 유두부로 배출되는 상부위장관 출혈 현상으로 남성에게 보다 빈번하다. 보통 만성 음주력과 연관이 높고, 발병 연령은 50-60세로 알려져 있으며, 1970년 Sandblom에 의하여 처음 보고되었다[4,5].

HP 발생 원인은 주로 급성 또는 만성 췌장염, 종양 혹은

혈관 이형성, 동정맥 기형 등으로 알려져 있다[2,3]. 가장 흔한 원인은 만성 췌장염 이후 2차적으로 발생하는 가성동맥류로, 만성 췌장염의 10%에서 발생한다[5]. 만성 또는 급성 췌장염의 합병증으로 발생하는 가성동맥류는 가성낭종의 압박 또는 효소 작용에 의해 췌장 주위 동맥의 근육층이 자가소화되어 형성되며, 이렇게 형성된 가성동맥류가 가성낭종 내로 파열되면 가성낭종 자체가 더 큰 가성동맥류로 전환된다[6]. 가성동맥류가 파열될 경우 HP와 같이 췌관 내로 출혈이 발생하고, 복막, 후복막장기, 인접 장기(위, 대장 등)로도 출혈이 가능하다[4]. 특히 비장동맥이 60-65%로 췌장염이 동반될 경우 가성동맥류가 발생하기 쉬운 위치에 있다[5]. 비장 가성동맥류의 20.3%에서 췌관으로의 출혈이 발생하며, 치료되지 않을 경우 치사율은 90%에 육박한다[7].

위에서와 같이 HP는 만성 췌장염 이후의 가성동맥류 파열로 인해 발생하는 것이 일반적이나, 본 증례에서는 조직병리 검사상 혈관벽의 정상 3층이 보존되어 있는 진성동맥류로 확인되었다. 본 증례의 환자는 음주력이 없었으며, 만성 췌장염은 수년간 지속된 췌관내 출혈과 이에 따른 췌관 내압의 증가로 인해 이차적으로 병발한 것으로 판단된다. 본 증례 및 기존 문헌에서 보고한 3개의 비장동맥 진성동맥류에 의한 HP 증례 모두에서 HP의 원인이 가성동맥류인지 진성동맥류인지는 복부 전산화단층촬영이나 혈관조영술 등의 영상의학적 소견만으로는 구별이 불가능하였고 수술적 치료를 통한 병리학적 검체 획득을 통해 후향적으로 진단이 가능하였다[8]. 따라서 진단 과정에서 가성동맥류와 진성동맥류를 구별하는 것이 환자의 치료방침과 예후를 결정하는 임상적 의의는 갖기 어려울 것으로 생각되나[9], 가성동맥류는 급만성 췌장염에 의한 효소 분해 작용에 따른 혈관벽 손상이 주된 기전이고, 진성동맥류는 동맥경화에 의한 혈관벽 확장이 그 기전으로[8], 서로 상이한 병리기전을 가진 다른 개념의 질병이므로 추후 좀더 많은 증례가 보고되어 이 질환들에 대한 임상적 정보가 더 축적이 되었을 때는 추가적 분석 연구를 통해 다양한 임상적 의의를 도출해 볼 수 있을 것으로 판단된다.

HP 환자들 대부분은 복통, 위장관 출혈을 호소하며, 혈액 검사에서 고아밀라아제혈증 소견을 보인다[5]. 먼저 출혈과 함께 췌관이 일시적으로 확장되면, 관내 압력이 증가하면서 상복부 통증이 유발되고, 통증 발생 48시간 이후에 상부위장관 출혈이 나타난다[5]. 48시간 이후에 증상이 발생하므로, 내시경 시행 시에는 출혈 부위의 발견이 어렵다. 증례 환자의 경우도 같은 이유로 진단이 지연되었을 것으로 생각된다.

HP의 진단은 이러한 조건에서 HP는 내시경, 전산화단층촬영, 혈관조영으로 진단이 가능하다[5]. 상부위장관 출혈 환자들의 경우 처음 시행한 내시경에서 주유두부에서 출혈 소견이 관찰되거나 십이지장 하행부에 혈괴가 있는 경우 HP를 의심할 수 있겠으나, 이외에도 십이지장 하행부에 선혈이 있거나 혈괴가 있을 경우 십이지장경으로 주 유두부를 확인하는 것이 도움이 된다. 또한 복부 전산화단층촬영 검사시 비장동맥을 포함한 췌장 간동맥, 위십이지장동맥, 췌십이지장, 좌측위동맥, 상장간부동맥 혹은 장간정맥 등을 확인하여 진성동맥류 혹은 가성동맥류 등을 확인해야 한다. 혈관조영술을 시행 중에도 상기 혈관들을 확인하여 동맥류 변화를 확인하는 것이 중요하다.

HP의 치료 방법은 두 가지이다. 첫째, 혈관조영술을 이용한 색전술이다. 혈액학적으로 안정적인 상태에 있을 경우, 혈관중재술이 초기 치료의 첫 번째 선택으로, 79-100%의 환자에서 67%의 높은 성공률이 보고되었다[5]. 혈관중재술을 통한 색전술에는 두 가지 방법이 있는데, 풍선폐쇄술을 시행하거나 금속 코일이나 젤 등의 인공물을 삽입하여 파열된 동맥을 지혈한다[5]. 풍선폐쇄술은 수술 이전에 해당 혈관에 풍선을 삽입하는 시술로서, 대량 출혈이나 비장정맥의 혈전 이후에 오는 문맥 고혈압을 예방하는 조치이다. 코일 색전술의 경우 가성동맥류 내의 혈전 생성을 촉진하여 혈관을 지혈한다[5].

두 번째 치료로 수술이 있으며, 조절되지 않는 출혈, 지속되는 쇼크, 초기 색전술 이후의 재출혈시 시행한다[5]. 만성 췌장염으로 인한 심각한 통증이 동반되거나, 염증성 덩이로 담관이나 십이지장의 압박이 있을 경우에는 췌십이지장절제술이 선호되고, 원위부 췌장절제술 또한 가능하다[3]. 그러나 증례에서와 같이 활꼴인대증후군으로 인하여 색전술이 어려운 경우가 있다. 이 인대는 대부분 복강동맥 위를 가로지르는 것이 보통이나, 활꼴인대증후군 환자에서는 복강동맥 아래를 가로질러 압박을 유발한다. 증례 환자와 같이 일부 환자들에서는 복강동맥 협착이 지속될 경우 수술을 고려해야 한다[10].

본 증례에서는 전산화단층촬영 검사, 자기공명영상에서 원위부 췌장 근처에 위치한 악성 주췌관내 유두상 점액종양 또한 배제할 수 없어, 원위부 췌장절제술을 시행하였다. 그러나 수술 검체에서 췌관의 상피는 정상 소견이었으며, 악성 주췌관내 유두상 점액종양은 관찰되지 않았다. 술 전 영상에서 보였던 췌관 확장은 종양 때문이 아니라 반복되는 출혈에 따른 췌관 내압 증가로 인한 만성 변화로 생각되며, 자기공명영상에서 보였던 종양 의심 병변은 췌관내 혈괴가 결절로 오인되었던 것으로 생각된다.

## 요 약

HP는 혈액이 췌관을 통하여 주 유두부로 배출되는 상부 위장관 출혈로, 드문 빈도와 증상의 간헐성으로 인해 정확한 초기 진단이 어려운 경우가 많으나, 상부위장관 출혈 환자에서 십이지장내에 출혈이 관찰되는 경우 반드시 감별이 필요한 질환이다. 가성동맥류의 경우 급성 및 만성 췌장염에 의한 효소 작용으로 혈관벽이 손상되어 발생하나, 진성동맥류의

경우 동맥경화로 인한 혈관벽 확장이 주요 기전으로, 진성동맥류로 인한 HP 발생 가능성 역시 고려되어야 하겠다. 기존의 보고와는 달리 저자들은 만성 음주력 없이 비장동맥의 진성동맥류에 의하여 발생한 HP 1예를 경험하였고 이를 성공적으로 치료하고 최종 병리학적 소견을 확인하였기에 문헌 고찰과 함께 증례를 보고하는 바이다.

**중심 단어:** 만성 췌장염; 상부위장 출혈; 비장동맥류

## REFERENCES

1. Longstreth GF. Epidemiology of hospitalization for acute upper gastrointestinal hemorrhage: a population-based study. *Am J Gastroenterol* 1995;90:206-210.
2. Anil Kothari R, Leelakrishnan V, Krishnan M. Hemosuccus pancreaticus: a rare cause of gastrointestinal bleeding. *Ann Gastroenterol* 2013;26:175-177.
3. Rammohan A, Palaniappan R, Ramaswami S, et al. Hemosuccus pancreaticus: 15-year experience from a tertiary care GI bleed centre. *ISRN Radiol* 2013;2013:191794.
4. Starling JR, Crummy AB. Hemosuccus pancreaticus secondary to ruptured splenic artery aneurysm. *Dig Dis Sci* 1979; 24:726-729.
5. Han B, Song ZF, Sun B. Hemosuccus pancreaticus: a rare cause of gastrointestinal bleeding. *Hepatobiliary Pancreat Dis Int* 2012;11:479-488.
6. Forsmark CE, Wilcox CM, Grendell JH. Endoscopy-negative upper gastrointestinal bleeding in a patient with chronic pancreatitis. *Gastroenterology* 1992;102:320-329.
7. Agrawal GA, Johnson PT, Fishman EK. Splenic artery aneurysms and pseudoaneurysms: clinical distinctions and CT appearances. *AJR Am J Roentgenol* 2007;188:992-999.
8. Clay RP, Farnell MB, Lancaster JR, Weiland LH, Gostout CJ. Hemosuccus pancreaticus. An unusual cause of upper gastrointestinal bleeding. *Ann Surg* 1985;202:75-79.
9. Sadhu S, Sarkar S, Verma R, Dubey S, Roy M. Haemosuccus pancreaticus due to true splenic artery aneurysm: a rare cause of massive upper gastrointestinal bleeding. *J Surg Case Rep* 2010;2010:4.
10. Horton KM, Talamini MA, Fishman EK. Median arcuate ligament syndrome: evaluation with CT angiography. *Radio-graphics* 2005;25:1177-1182.