

## 간경변에서 혈관종을 통한 간동맥-문맥간 단락에 의한 식도정맥류 출혈

한양대학교 의과대학 내과학교실, 구리병원, 소화기병연구소<sup>2</sup>

정재윤 · 손주현 · 손병관 · 한동수 · 이민호<sup>2</sup> · 이동후<sup>2</sup> · 기춘석<sup>2</sup>

=Abstract=

### A case of esophageal variceal bleeding due to a hepatic arterioportal shunt through a hemangioma in cirrhosis

Jae Yoon Jeong, M.D., Joo Hyun Sohn, M.D., Byoung Kwan Son, M.D., Dong Soo Han, M.D., Min Ho Lee, M.D., Dong Hoo Lee, M.D. and Choon Suk Kee, M.D.

Department of Internal Medicine, Hanyang University College of Medicine, Guri, Korea

The hepatic hemangioma is the most common benign tumor in the liver. Most hemangiomas are asymptomatic and treatment is not required. Rarely, complications occur due to a hepatic arterioportal shunt through a large high-flow hemangioma. We report a case of recurrent esophageal variceal bleeding despite repeated esophageal variceal ligation (EVL) due to a hepatic arterioportal shunt through a large high-flow hemangioma that was successfully treated with hepatic arterial embolization, in a patient with cirrhosis and end stage renal disease. (Korean J Med 73:76-80, 2007)

**Key Words** : Esophageal varices, Hematemesis, Hemangioma, Portal hypertension, Liver cirrhosis

### 서 론

간혈관종은 간에 생기는 가장 흔한 양성 종양이다. 대부분 작고 증상이 없어 우연히 발견되며, 크기가 크거나, 다발성으로 발생하여 증상을 유발하거나, 괴열, 출혈 등의 합병증을 일으키지 않으면 특별한 치료가 필요치 않다<sup>1)</sup>. 간혈관종이 간동맥-문맥간 단락을 동반하는 경우가 있으며 매우 드물게 이로 인해 유발되는 문맥압항진증이 정맥류 출혈, 복수, 간성 뇌증과 같은 심각한 합병증을 초래하기도 한다. 국외에서는 심각한 출혈을 일으킨 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종에 대해 보고된 바 있으나<sup>2)</sup>, 국내 보고는 없었다. 저자들은 반복적인 식도정

맥류 출혈이 발생하여 반복된 내시경적 결찰술에도 정맥류가 호전되지 않고 지혈이 어려웠던 간경변증 환자에서 발견된, 거대 고혈류성 간혈관종을 통한 간동맥-문맥간 단락에 기인한 식도정맥류 출혈 1예를 경험하였기에 보고한다.

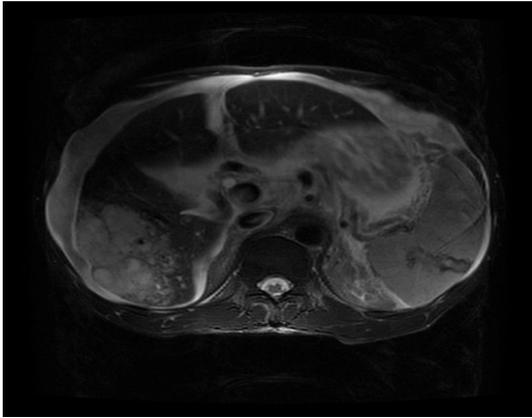
### 증 례

41세 남자 환자로 2시간 전 발생한 토혈을 주소로 내원하였다. 환자는 10여 년 전 고혈압을 진단받았고, 2년 전부터 말기 신질환에 대해 개인병원에서 주 3회 혈액투석을 받고 있었다. 3개월 전에도 토혈을 주소로 입원하여 거대 식도정맥류 출혈에 대한 내시경적 지혈술을

• Received : 2006. 5. 23

• Accepted : 2006. 8. 21

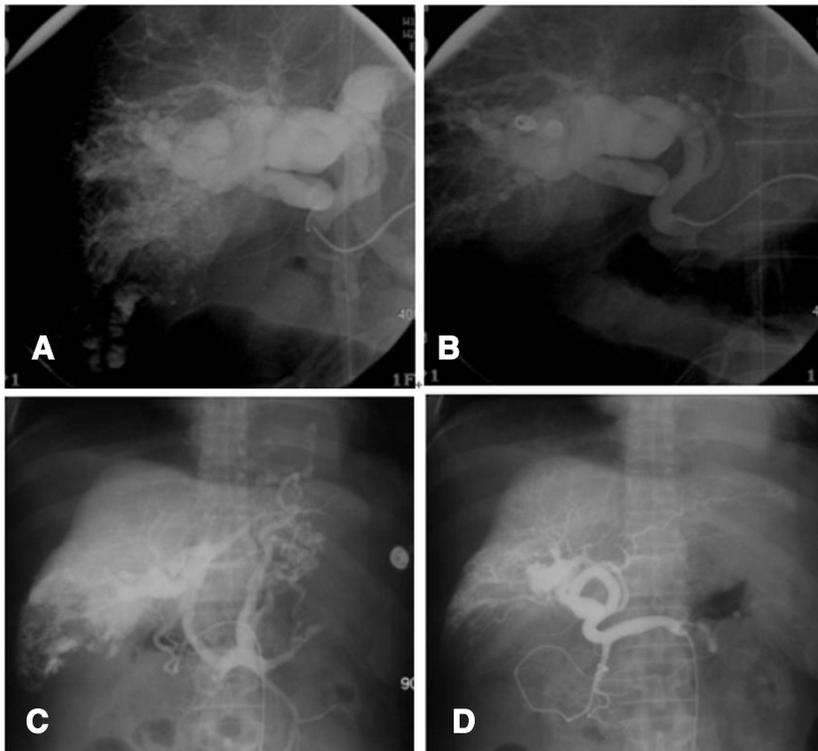
• Correspondence to : Joo Hyun Sohn, M.D., Department of Internal Medicine, Hanyang University Guri Hospital, 249-1 Gyomun-dong, Guri 471-701, Korea E-mail : sonjh@hanyang.ac.kr



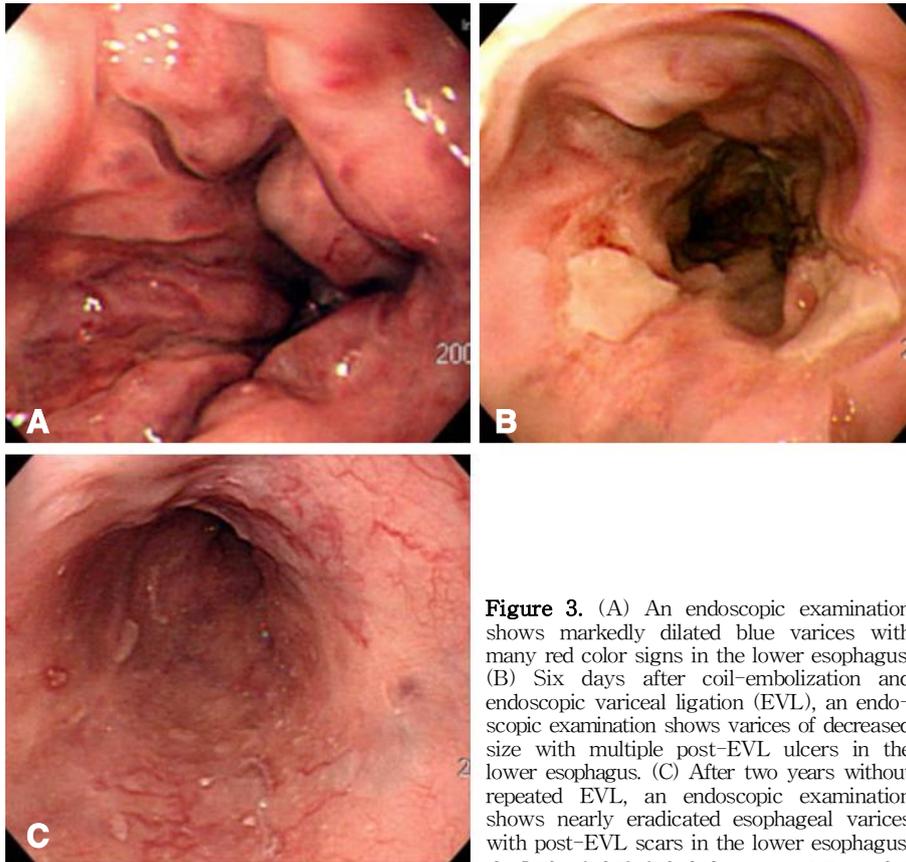
**Figure 1.** A T2 MR image shows a large exophytic mass with high signal intensity in the liver segments VI and VII.

7일 간격으로 2회 시행받았다. 당시 복부초음파검사서 결절성 간 표면과 간우엽 위축이 관찰되었고, 비장 비대와 다량의 복수가 동반되어 있는 진행성 간경변증 소견을 보였다. 그 외에 6번과 7번 간 분절에 걸쳐 간 밖으로 돌출되는 양상의 큰 종양(9×8×7 cm)이 발견되었고, 이 종양은 자기공명영상검사서 간혈관종으로 진단되었다(그림 1). 환자는 퇴원 후 소화기내과의 외래 추적관찰 없이 신장내과의원에서 혈액투석을 받고 있었으며, 식도정맥류 출혈의 이차 예방을 위해 하루 80 mg의 propranolol을 복용하고 있었다.

내원 시 환자는 토혈, 어지러움, 전신 쇠약감 등을 호소하였고, 이학적 검사에서 체온 36.8℃, 맥박 110회/분, 호흡 22회/분, 혈압 110/70 mmHg으로 측정되었다. 환자



**Figure 2.** (A) Hepatic angiography shows a hepatic arterioportal shunt through a large high-flow hemangioma in the right hepatic lobe. (B) After a coil-embolization in the right hepatic artery, the vascularity of hemangioma decreased, opacification of the portal vein was delayed, and the hepatofugal flow disappeared. (C) About 2 months after the initial coil-embolization, the right hepatic artery was re-canalized and the severe arterioportal shunt was re-observed; the hepatofugal flow increased.(D) After a secondary coil-embolization in the right hepatic artery, the hepatofugal flow again disappeared.



**Figure 3.** (A) An endoscopic examination shows markedly dilated blue varices with many red color signs in the lower esophagus. (B) Six days after coil-embolization and endoscopic variceal ligation (EVL), an endoscopic examination shows varices of decreased size with multiple post-EVL ulcers in the lower esophagus. (C) After two years without repeated EVL, an endoscopic examination shows nearly eradicated esophageal varices with post-EVL scars in the lower esophagus.

의 의식은 명료하였으며, 결막은 창백하였고, 공막에 황달은 없었으며, 경도의 비장종대가 동반되어 있었다.

검사실 소견에서 일반혈액검사는 백혈구 5,900/mm<sup>3</sup>, 혈색소 7.8 g/dL, 혈소판 113,000/mm<sup>3</sup>이었고, 일반화학검사는 총단백 6.4 g/dL, 알부민 3.0 g/dL, 콜레스테롤 183 mg/dL, AST/ALT 34/38 U/L, 총 빌리루빈 1.2 mg/dL, gamma-GT 46 U/L, prothrombin time 13.2 sec 였다. 전해질 검사에는 이상소견이 없었고, BUN 62 mg/dL, creatinine 5.7 mg/dL였다. 간염바이러스 표지자 검사에서 HBsAg과 HBeAg은 양성, anti-HBe 항체는 음성이었고, HBV DNA는 3.7 pg/mL, 알파태아단백은 1.85 ng/mL였다.

응급 상부위장관 내시경검사에서 결절상의 굵은 정맥류가 상부식도까지 관찰되고 있었고, 하부식도에는 적색 징후가 동반되어 있었다. 하부식도에서 6개의 O-band를 이용해 정맥류 결찰술을 시행하였다. 일주일 후에 시행

한 추적 내시경검사에서는 중증도로 크기가 감소한 식도정맥류가 중부식도까지 관찰되었다. 그러나 일주일 후 다시 다량의 토혈이 있어 응급내시경검사를 시행하였다. 다시 확장된 정맥류에서 내시경 시야확보가 어려울 정도의 활동성 출혈이 지속되었고, 혈압이 80/40 mmHg으로 감소하여 Sengstaken-Blakemore (S-B)관을 삽관하였다. 반복적인 불응성 식도정맥류 출혈에 대한 치료로 경정맥 간내문맥 정맥 단락술(transjugular intrahepatic portosystemic shunt, TIPS)을 시도하였다. 간동맥 혈관촬영술에서 간혈관종을 통한 고혈류의 간동맥-문맥단락과 굵은 크기의 혈관이 직접 식도정맥류로 연결되는 것이 관찰되었다. 비수술적인 요법으로 간동맥-문맥단락 부위의 간동맥에서 microcoil 3개와 젤폼을 이용한 간동맥 색전술을 시행하였다(그림 2A, 2B). 다시 식도정맥류 결찰술을 시행하였으며, 이후 재출혈은 없었고, 20일 후 시행한 추적 내시경검사에서 크기가 현저히 감소한 식도정맥류가 확인되었다. 2개월 후 시행한 추적 내시경검사에서 하부식도에 적색징후를 보이며 상부식도까지 결

절상으로 크게 확장된 정맥류 악화조건이 다시 관찰되었다(그림 3A). 예방적 밴드 결찰술에도 불구하고 곧 재출혈이 생겨 간동맥 혈관촬영술을 재시도하였다. 간동맥 혈관촬영술 결과 다시 간혈관종을 통한 재소통이 관찰되어 커져 있는 간동맥에 histoacryl을 주입한 후 microcoil 2개를 설치하였다(그림 2C, 2D). 6일 후 시행한 추적 내시경검사에서 크기가 감소한 식도정맥류가 확인되었다(그림 3B). 약 2년 후 추적 내시경검사서 식도정맥류의 크기는 현저히 감소한 채 유지되고 있으며(그림 3C), 현재 재출혈 없이 외래 추적관찰 중이다.

## 고 찰

간혈관종은 간에 생기는 가장 흔한 양성 종양이며, 전 인구의 약 7%에서 나타난다. 대부분은 무증상으로 인해 복부 초음파검사, 복부 컴퓨터 단층 촬영검사 등으로 우연히 발견되는 것이 보통이다<sup>1)</sup>. 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종은 과거에는 드문 것으로 알려졌으나<sup>3)</sup>, 최근에는 복부 컴퓨터 단층 촬영검사의 증가와 혈관 조영술의 발달 등으로 인해 간 혈관종이 간동맥-문맥간 단락을 많이 동반한다고 보고하고 있다. Kim 등의 연구 보고에 따르면 2-phase 나선식 컴퓨터 단층 촬영검사를 통해 69명 환자에서 총 109개의 간혈관종 중 28개 (25.7%)의 간동맥-문맥간 단락이 발견되었다<sup>4)</sup>. 또한, Ouyang 등의 연구 보고에서도 디지털 감산 혈관 조영술(hepatic artery digital subtraction angiography)을 시행한 간혈관종 환자 30명 중 17명에서 간동맥-문맥간 단락이 발견되었다고 보고하였다<sup>5)</sup>.

간동맥-문맥간 단락을 가진 환자는 대부분 증상 없이 지내지만, 드물게 위장관 출혈 및 복수와 같은 문맥압항진증에 의한 합병증이나 장허혈 등이 나타날 수 있다<sup>6, 7)</sup>. 일반적으로 간혈관종에 동반된 간동맥-문맥간 단락의 경우 간에 생기는 다른 종양과 같이 단락 자체로 인한 증상은 드물다<sup>8)</sup>. 증상의 정도는 주로 단락된 혈류량에 의해 결정되며, 이외에 단락의 위치, 문맥혈류에 대한 간의 저항성에 의해 좌우된다<sup>8)</sup>. 본 증례에서도 간동맥조영술 소견상 간동맥에서 문맥을 통해 관상정맥(coronary vein)으로 고압력의 혈류가 유입되는 것이 관찰되었고 식도정맥류는 반복적인 내시경적 지혈술과 베타 차단제과 같은 약물 요법에도 조절되지 않았다. 간동맥 색전술을 시행한 후에 간동맥에서 문맥으로 흐르는 혈류의 유입 속도가 현저히 감소하는 것이 확인되었고, 이후 추적

내시경검사서 식도정맥류가 현저히 감소되어 있는 것을 보아 단락된 혈류량의 양에 의해 증상의 정도가 결정된다는 것을 확인할 수 있었다. 또한, 기저질환인 간경변 증도 증상 악화에 기여하였을 것으로 생각된다.

간혈관종은 대개 증상이나 합병증이 없어 치료가 필요하지 않지만 증상이나 합병증이 있을 경우 적절한 치료가 필요하다. 일반적으로 크기가 크거나 증상이 있는 간혈관종은 절제와 같은 수술적 치료가 선호되고 있다<sup>9)</sup>. 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종의 치료에 대해 많은 증례가 보고되어 있지는 않지만, Shimada 등은 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종은 문맥압항진증의 위험이 높을 뿐 아니라 고혈류로 인한 자발성 파열의 위험이 높아 간절제와 같은 수술적 치료를 권유하였다<sup>10)</sup>. 그러나 환자의 상태 등을 고려하여 수술적 치료가 어려운 경우 방사선 조사, 동맥 결찰술, 스테로이드 치료, 간동맥을 통한 색전술 등이 시도되고 있다<sup>11-14)</sup>. 혈관종이 파열된 경우 간절제술 이전에 지혈을 위해 간동맥 색전술이나 결찰술을 시행하기도 한다. Srivastava 등은 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종에 대해 색전술 후 수술적 치료를 시도하기도 하였다<sup>15)</sup>. 또한, 최근에 98명을 대상으로 한 다기관 연구<sup>16)</sup>에서 거대 간혈관종의 치료로 간동맥 색전술이 효과적이며 안정적이라는 것이 증명이 되어 색전술에 의한 치료가 널리 사용될 수 있을 것으로 생각된다.

출혈과 같은 심각한 합병증을 일으킨 고혈류 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종의 보고는 국내에는 아직 없으며 국외에 Tanaka 등이 보고한 간동맥-문맥간 단락과 문맥전신간 단락을 동반한 간혈관종 1개의 증례가 있다<sup>2)</sup>. 본 증례의 경우 환자는 간혈관종을 동반한 간동맥-문맥간 단락에 의한 정맥류 출혈이 있어 수술적 치료를 고려하였으나, 말기 신부전과 간경변 등이 있어 간절제술 후 간부전의 위험이 높아 중재적 시술을 선택하였다. 간동맥-문맥간 단락에 대해 간동맥에 coil와 gelfoam을 이용해 색전술을 시행하였고, 단락 재소통 후 다시 histoacryl과 coil을 이용한 색전술을 시행하여 정맥류는 호전되었다.

결론적으로 증상이나 합병증을 일으키는 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종의 치료로 간절제술 등의 수술적 치료를 우선 고려해야 하겠지만, 환자의 상태가 수술이 어려울 경우 시술자의 숙련도에 따라 간동맥 색전술이 좋은 치료 대안이 될 수 있다. 하지만 앞으로 간

동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종의 치료로 간동맥 색전술에 대한 치료 결과나 합병증에 대해 더 많은 비교 연구가 필요할 것으로 생각된다.

## 요 약

간혈관종은 간에 생기는 가장 흔한 양성 종양이다. 대부분 작고 증상이 없어 우연히 발견되며, 크기가 크거나, 다발성으로 발생하여 증상을 유발하거나, 과열, 출혈 등의 합병증을 일으키지 않으면 특별한 치료가 필요하지 않다. 간혈관종이 간동맥-문맥간 단락을 동반하는 경우가 있으며, 매우 드물게 이로 인해 유발되는 문맥압항진증이 정맥류 출혈, 복수, 간성뇌증과 같은 심각한 합병증을 초래하기도 한다. 아직까지 정맥류 출혈과 같은 심각한 합병증을 가진 간동맥-문맥간 단락을 동반한 간혈관종은 국내에서 보고된 증례는 없다. 저자들은 반복적인 식도정맥류 출혈이 발생하여 반복된 내시경적 결찰술에도 정맥류가 호전되지 않고, 지혈이 어려웠던 간경변증 환자에서, 간동맥-문맥간 단락을 동반하는 거대 고혈류성 간혈관종을 발견하고 이를 간동맥 색전술로 치료하여 식도정맥류의 재출혈을 예방할 수 있었던 증례 1예를 경험하였기에 보고한다.

**중심 단어** : 식도 정맥류, 토혈, 혈관종, 문맥압항진증, 간경변증

## REFERENCES

- 1) Feldman M, Friedman L, Sleisenger MH. *Sleisenger & Fordtrans gastrointestinal and liver disease pathophysiology/diagnosis/management. 7th ed. p. 1592-1593, St. Louis, Saunders, 2002*
- 2) Tanaka A, Morimoto T, Yamamori T, Moriyasu F, Yamaoka Y. *Atypical liver hemangioma with shunt: long-term follow-up. J Hepatobiliary Pancreat Surg 9:750-754, 2002*
- 3) Winograd J, Palubinskas AJ. *Arterial-portal venous shunting in cavernous hemangioma of the liver. Radiology 122:331-332, 1977*
- 4) Kim KW, Kim TK, Han JK, Kim AY, Lee HJ, Choi BI. *Hepatic hemangiomas with arterioportal shunt: findings at two-phase CT. Radiology 219:707-711, 2001*
- 5) Ouyang Y, Ouyang XH, Yu M, Gu SB. *Frequency of arteriovenous shunts in hepatic cavernous hemangiomas in adults as seen on selective arteriography and postembolization radiography. Cardiovasc Intervent Radiol 24:161-167, 2001*
- 6) Aithal GP, Alabdi BJ, Rose JD, James OF, Hudson M. *Portal hypertension secondary to arterio-portal fistulae: two unusual cases. Liver 19:343-347, 1999*
- 7) Capron JP, Gineston JL, Remond A, Lallement PY, Delamarre J, Revert R, Veysier P. *Inferior mesenteric arteriovenous fistula associated with portal hypertension and acute ischemic colitis: successful occlusion by intraarterial embolization with steel coils. Gastroenterology 86:351-355, 1984*
- 8) Vauthey JN, Tomczak RJ, Helmberger T, Gertsch P, Forsmark C, Caridi J, Reed A, Langham MR Jr, Lauwers GY, Goffette P, Lerut J. *The arterioportal fistula syndrome: clinicopathologic features, diagnosis, and therapy. Gastroenterology 113:1390-1401, 1997*
- 9) Takagi H. *Diagnosis and management of cavernous hemangioma of the liver. Semin Surg Oncol 1:12-22, 1985*
- 10) Shimada M, Matsumata T, Ikeda Y, Urata K, Hayashi H, Shimizu M, Sugimachi K. *Multiple hepatic hemangiomas with significant arterioportal venous shunting. Cancer 73:304-307, 1994*
- 11) Gaspar L, Mascarenhas F, da Costa MS, Dias JS, Afonso JG, Silvestre ME. *Radiation therapy in the unresectable cavernous hemangioma of the liver. Radiother Oncol 29:45-50, 1993*
- 12) Nishida O, Satoh N, Alam AS, Uchino J. *The effect of hepatic artery ligation for irresectable cavernous hemangioma of the liver. Am Surg 54:483-486, 1988*
- 13) Vlachos P, Anoussakis C, Liakakos D. *Successful treatment of multiple cavernous hemangioma of the liver with prednisolone. Helv Paediatr Acta 29:439-441, 1974*
- 14) Suzuki H, Nimura Y, Kamiya J, Kondo S, Nagino M, Kanai M, Miyachi M. *Preoperative transcatheter arterial embolization for giant cavernous hemangioma of the liver with consumption coagulopathy. Am J Gastroenterol 92:688-691, 1997*
- 15) Srivastava DN, Sharma S, Yadav S, Nundy S, Berry M. *Pedunculated hepatic haemangioma with arterioportal shunt: treated with angio-embolization and surgery. Australas Radiol 42:151-153, 1998*
- 16) Zeng Q, Li Y, Chen Y, Ouyang Y, He X, Zhang H. *Gigantic cavernous hemangioma of the liver treated by intra-arterial embolization with pingyangmycin-lipiodol emulsion: a multi-center study. Cardiovasc Intervent Radiol 27:481-485, 2004*