



2023-1

발송일: 2023년 1월 19일

반복되는 혈변으로 발현한 공장의 이소성 췌장 (Jejunal ectopic pancreas presenting with recurrent obscure bleeding)

증례

83세 여자가 내원 6시간 전 발생한 혈변 및 전신쇠약감을 주소로 내원하였다. 고혈압과 당뇨병으로 치료 중이었으며, 대퇴골 경부 골절로 수술한 과거력이 있었다. 항혈전제는 사용하고 있지 않았다. 환자는 3-4년 전부터 5-12개월 간격으로 발생하는 다량의 혈변으로 여러 병원에서 수차례 입원치료를 한 과거력이 있었다. 본원에서도 2년 전부터 세 차례 입원하여 검사한 과거력이 있으며, 세 번의 위내시경, 두 번의 대장내시경, 한 번의 에스결장내시경, 한 번의 캡슐내시경, 한 번의 99mTc-RBC 스캔, 그리고 세 번의 GI bleeding CT를 시행하였으나 출혈 원인을 찾지 못한 상태였다. 과거 입원 당시에는 출혈이 저절로 멎었으나, 대량출혈로 인하여 수혈을 포함한 지지 요법이 긴급히 요구되었다.

내원 시 혈압 100/60 mmHg, 맥박 95회/분, 호흡 16회/분, 체온 36.5°C 이었다. 의식은 명료하였으나 급성 병색이었다. 혈액검사에서 혈색소 5.9 g/dL, BUN/Cr 74.2/1.74 mg/dL였다. 수혈, 양성자 펌프억제제 정주 및 수액 요법을 시행하였다. 응급실에서 시행한 CT에서는 이번에도 출혈 의심 병소는 관찰되지 않았다. 내원 당일 시행한 위내시경 및 내원 다음날 시행한 대장내시경에서 특이 소견 없었으며 위장관 내에서 혈액도 관찰되지 않았다. 캡슐내시경에서 영상재생 2시간~2시간 50분의 소장(근위부 공장)에서 다량의 신선혈이 확인되었다(Fig. 1).

이를 뒤 이중풍선소장내시경을 시행하였다. 근위부 공장(유두부에서 약 50-60cm 원위부, 2-3회 단축 시 병변 확인)에 약 2-3cm길이의 정상점막으로 덮인 용기 병변이 관찰되며, 병변의 일부는 투명하거나 약간 푸른색을 띠는 양상으로 인젝터로 눌렀을 때 비교적 단단하였고(rolling sign 양성, cushion sign 음성) 병변의 중앙에서 점액이 새어 나오는 양상이었다. 병변의 주위에 자가 혈로 타투를 2곳에 시행하고 클립으로 표시하였다(Fig. 2). 중앙 주변으로 활동성 출혈 병소나 뚜렷한 출혈 성흔은 보이지 않았다. 그러나, 캡슐내시경 소견과 종합하여 볼 때 근위부 공장의 상피하병변이 출혈의 원인으로 추정되었으므로 수술적 치료를 위해 외과에 협진하여 근위부 공장의 부분 절제술을 시행하였다. 조직검사 결과 2.3cm 크기의 이소성 췌장으로 확인되었다(Fig. 3 and 4). 환자는 퇴원 이후 현재까지 1년 이상 외래 추적관찰 중이나, 더 이상의 출혈이나 빈혈 소견은 없다.

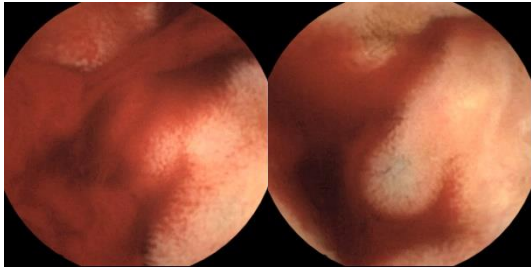


Fig. 1. Capsule endoscopy findings: Considerable amount of fresh blood is identified at the site presumed as the proximal jejunum.

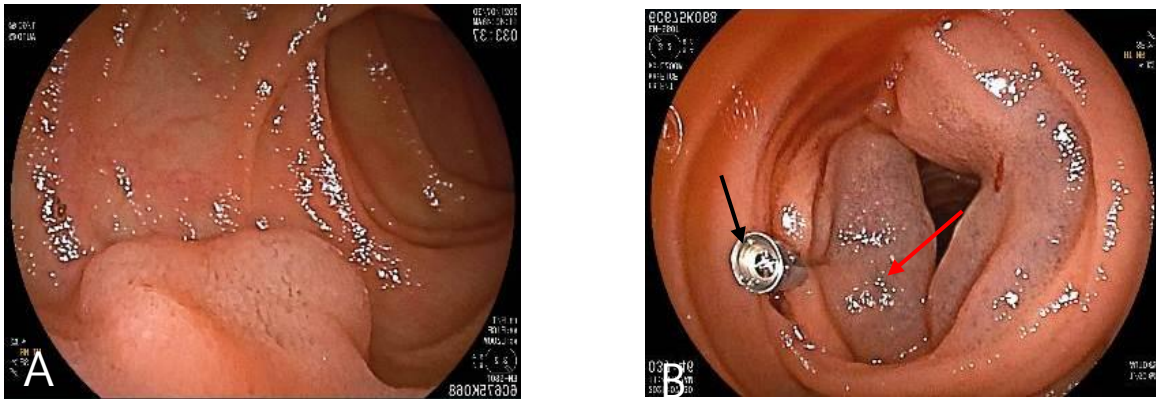


Fig. 2. Double-balloon enteroscopy: A. A subepithelial lesion (2-3 cm in size) covered with normal mucosa is observed in the proximal jejunum, which is partly transparent to slightly bluish. B. Autologous blood tattoo (red arrow) has been performed around the lesion and marked with a clip (black arrow).



Fig. 3. Laparoscopy resection of the segment of the proximal jejunum and the resected specimens.

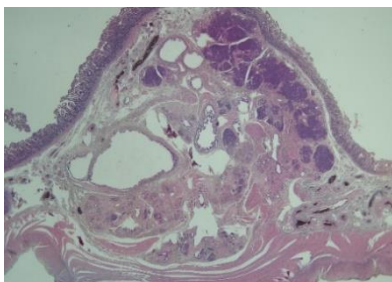


Fig. 4. Pathological findings: Pancreatic parenchyma with dilated ducts is observed in the submucosa of the small intestine.

고찰

이소성 췌장(ectopic pancreas)은 췌장의 선천성 기형의 일종이다. 임상에서 매우 드물고(발병률 0.5~13.7%), heterotopic pancreas, accessory pancreas, 혹은 aberrant pancreas로도 알려져 있다.^{1,2} 대부분 위내시경 검사에서 우연히 발견되는데, 유문환에서 근위부 5cm 이내의 전정부 대만에 주로 위치하지만, 위의 다른 부위나 소장 등 전체 위장관뿐만 아니라 복강 및 복부 외 장기 어느 곳에서나 발생할 수 있다. 거의 대부분(75~90%)은 위, 십이지장, 공장에서 발견되는 것으로 알려져 있다. 이소성 췌장의 다양한 분포 가능성에 대한 설명으로는, 췌장이 발생할 때 췌장으로 분화하는 내배엽 세포가 위와 십이지장 근처에서 기원하다가 주변으로 끼어 들어간다는 이론과, 다른 장기에서 전능한 내배엽 세포(totipotent endodermal cells)가 췌장 조직으로 분화된다는 이론이 있다. 이소성 췌장이 내시경에서 관찰되는 형태는 부드러운 상피하병변을 띠는데, 주로 평평하게 퍼져 있고, 중앙이 움푹 들어간 표면(central umbilication)이 약 50%에서 나타날 수 있다.³ 크기는 2cm 이하인 경우가 많지만 더 작거나 5cm까지 큰 경우도 있다. 주로 점막하층(submucosal)에 위치하는데, 근육내(intramuscular) 혹은 장막하층(subserosal)에 위치하기도 한다. 대부분의 경우 무증상이지만 위치나 크기에 따라 중앙 덩어리 효과(tumor mass effect)로 인한 복통이나 팽만감과 같은 증상이 나타나기도 한다. 또한, 위장관 출혈, 천공 관련 복막염도 보고 된다.^{4,5} 드물게, 이소성 췌장 환자에서 염증이나 악성화로 인해 췌장염이나 췌장암이 보고된 적도 있다.^{6,7} 그러나 이소성 췌장은 증상이 없거나, 증상이 있더라도 비특이적으로 다양할 수 있기 때문에 진단이 어려울 수도 있다.³

본 증례는 원인불명의 위장관 출혈 (obscure gastrointestinal bleeding)이 오랜 기간 반복적으로 지속되었으나, 소장내시경 검사를 통해서 이소성 췌장에 의한 출혈이 그 원인으로 밝혀진 증례다. 원인불명의 위장관 출혈의 진단 과정에서 캡슐내시경과 CT로 출혈 병변이 확인되지 않더라도 좀 더 이른 시기에 진단적 소장내시경을 시행하는 것이 필요했을 것으로 생각된다. 다만, 환자의 고령과 기저질환 등을 고려해서 적극적인 술기를 시행하기가 어려웠던 점이 있다. 본 증례와 같이 대량 출혈 이후 바로 출혈이 멎어 버리는 경우는 병변의 위치를 특정하기가 매우 어려울 수 있으므로, 원인불명의 위장관 출혈 환자에서 이소성 췌장에 의한 소장 출혈의 가능성도 염두에 두어야 함을 시사한다.

참고문헌

1. Li J, Huang H, Huo S, et al. Ectopic pancreatic tissue in the wall of the small intestine: Two rare case reports. *Medicine (Baltimore)* 2017;96:e7986.
2. Straatman J, Meester RJ, Grieken NC, et al. Clinical picture: multiple sites of ectopic pancreatic tissue. *Springerplus* 2015;4:293.
3. Yuan Z, Chen J, Zheng Q, Huang XY, Yang Z, Tang J. Heterotopic pancreas in the gastrointestinal tract. *World J Gastroenterol* 2009;15:3701-3703.
4. Shiratori H, Nishikawa T, Shintani Y, et al. Perforation of jejunal diverticulum with ectopic pancreas. *Clin J Gastroenterol* 2017;10:137-141.
5. Mulholland KC, Wallace WD, Epanomeritakis E, Hall SR. Pseudocyst formation in gastric ectopic pancreas. *Jop* 2004;5:498-501.
6. Betzler A, Mees ST, Pump J, et al. Clinical impact of duodenal pancreatic heterotopia - Is there a need for surgical treatment? *BMC Surg* 2017;17:53.
7. Christodoulidis G, Zacharoulis D, Barbanis S, Katsogridakis E, Hatzitheofilou K. Heterotopic pancreas in the stomach: a case report and literature review. *World J Gastroenterol* 2007;13:6098-6100.

리뷰: 이상표 (한림의대 동탄성심병원 소화기내과)