담낭십이지장 누공에 의한 상부위장관 출혈

서민우

평택성모병원 소화기내과

Upper Gastrointestinal Bleeding with Cholecystoduodenal Fistula

Min Woo Seo

Department of Gastroenterology, Pyeongtaek St. Mary's Hospital, Pyeongtaek, Korea

Cholecystoduodenal fistula, caused by gallbladder stone, trauma, peptic ulcer disease, and malignancy, is an uncommon cause of upper gastrointestinal hemorrhage. I report a case of cholecystoduodenal fistula with upper gastrointestinal bleeding and gallbladder cancer. An 85-year-old male, complaining of hematemesis, was presented to the emergency department. Endoscopic examination revealed a 2 cm-sized ulceration at the first portion of the duodenum. Imaging studies, including CT, displayed cholecystoduodenal fistula accompanied with thickened gall bladder wall, air-fluid level in the gall bladder, and multiple hepatic metastatic lesions. The patient was referred for bleeding control surgery; however, he died due to recurrent and massive bleeding before surgery. Since bleeding from cholecystoduodenal fistula is associated with high mortality, early detection is critical for the prognosis. However, there is no typical symptoms and signs of cholecystoduodenal fistula. Additionally, diagnosis of cholecystoduodenal fistula using endoscopy alone was difficult. Therefore, it is recommended to use different diagnostic modalities, including enhanced CT. (Korean J *Helicobacter* Up Gastrointest Res 2022;22:59-62)

Key Words: Biliary fistula; Gallbladder neoplasms; Gastrointestinal hemorrhage

서론

담낭장관 누공은 담낭과 장관의 비정상적인 연결을 지칭한다. 보통 담관계의 돌에 의한 드문 합병증이나 이 외의 원인으로는 수술 후 합병증과 위장관계 궤양, 외상 그리고 악성 종양이 있다.¹ 발생 원인으로는 담낭의 염증성 반응으로 인해 인접 장기, 특히 십이지장과 유착이 발생하고, 이후 지속되는 압박으로 인해 담낭장관 누공이 형성되는 것으로 보고 있다.²

상복부 통증, 발열, 황달, 위장관 출혈 등 임상적인 증상이 비 특이적이고 다양해서 대부분 담낭염에 대한 수술 중 우연히 발견되는 경우가 많다.³ 이 중 담낭장관 누공에 의한 다량의 상부 위장관 출혈을 첫 증상으로 진단된 증례보고는 많지 않다. 특히 국내에 담관계의 돌이나 염증에 의해서가 아닌 악성 종양에 의한 경우로 추정되는 사례는 이제까지 보고가 없다. 이에 상기 증례를 공유하고자 한다.

증례

85세 남자는 평택성모병원에 2일된 흑색변과 당일의 토혈을 주소로 응급실 내원하였다. 신체 촉진상으로 경미한 명치부압통을 호소하고 있었으며, 내원 당시 생체징후 상 혈압 100/80 mmHg, 맥박 80/min, 호흡 수 20/min, 체온 36.8도로 확인되었다. 환자는 뇌경색의 기왕력이 있었으며, 이와 관련하여 cilostazol을 복용하고 있었다. 매일 소주 1병의 음주력이 있었으며 이외 특이 수술력은 없었다. 응급실 내원 당시 시행한 혈액 검사상으로 총 백혈구 $14,550/\text{mm}^3$, 헤모글로빈 7.0 g/dL, 그리고 혈소판 $300,000/\text{mm}^3$ 로 측정되었다. 생화학 검사상으로 총 빌리루빈 0.24 mg/dL, 아스파테이트아미노전효소 18 U/L, 알라닌아미노전효소 10 U/L, 감마글루타밀전효소 53 U/L, 혈액요소질소 25.7 mg/dL, 크레아티닌 0.78 mg/dL, 그리고 C반응단백 3.54 mg/dL로 확인되었다. 상부위장관 출혈에 대하여 응급 상부위장관 내시경을 시행하였고, 위장 내로 내시경 진입 시 최근 출혈로 의심되는 다량의 혈종이 관찰되었다(Fig. 1A). 또한 위의 전정부 소만에 외부 압박에 의한 내강으로의 점막 돌출이 관찰되었다(Fig. 1B). 흡입 및 스크의 선단을 이용하여 혈종을 제거하며 십이지장으로 진입하자, 혈괴는 십이지장 first portion까지 이어져 있었고, 유문부 통과 후

Received: November 16, 2021 Revised: December 2, 2021 Accepted: December 16, 2021

Corresponding author: Min Woo Seo

Department of Gastroenterology, Pyeongtaek St. Mary's Hospital, 284 Pyeongtaek-ro, Pyeongtaek 17825, Korea

Tel: +82-70-5012-3420, Fax: +82-70-5012-3653, E-mail: seominwu@naver.com

Copyright © 2022 Korean College of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research

© The Korean Journal of *Helicobacter* and Upper Gastrointestinal Research is an Open-Access Journal. All articles are distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Fig. 1. The esophagogastroduodenoscopy finding. (A) When the scope enters the gastric antrum, hematoma from the duodenum is observed. (B) The antrum lesser curvature shows external indentation by the gallbladder. (C) The duodenal first portion shows fistula opening and hemorrhagic leakage.

Fig. 2. (A) Contrast-enhanced CT shows cholecystoduodenal opening at the duodenum (arrow). (B) Coronal views shows air biligram with thickened gall bladder wall (arrow).

Fig. 3. Contrast-enhanced CT shows multiple liver masses (arrow) consistent with multiple metastases.

약 2 cm 가량 진입 시 6시 방향에 상피하 종양 형태의 정상 점막 돌출과 중앙부에 2×2 cm의 혈괴가 부착되어있는 궤양 형태의 출혈 원인병소가 확인되었다(Fig. 1C). 상기 부위에 워터젯 기능(water jet)과 엘리게이터포셉(alligator forcep)을 이용하여 좀 더 명확히 출혈병소의 구체화를 시도하였고, 상기 궤양부위 전체에서 밀려나오는 양상의 혈종이 관찰되어 궤양 기저부 전체가 출혈 원인 부위로 추정되었다. 출혈의 원인 부위가 크고 비전형적인 형태를 가지고 있어 내시경적 지혈술은 어렵다 판단되었다. 또한 위강 내 외부압박의 병변과 십이지장에 비전형적인 궤양 출혈에 대하여 조영 컴퓨터단층촬영(enhanced CT)이 필요하다는 판단 하에 검사를 종료하였다. 이어서 시행한 CT 상으로 담관계 내의 다량의 공기와 확장된 담낭이 관찰되었으며, 담낭의 일부가 십이지장의 벽과 연결되어 있었다(Fig. 2). 이외 담낭벽에 종양으로 의심되는 비정상적인 비후와 간 내 다

발성의 전이로 의심되는 병변이 있었다(Fig. 3). 이에 담낭의 악성 종양에 의한 십이지장 누공과 이로 인한 출혈 진단 후 응급 혈관조영 시술 또는 수술적 치료를 계획하였다. 하지만 이후 환자는 내시경 종료 1시간 이내에 다시 반복되는 토혈을 보이며 의식저하 소견을 보였다. 이어서 혈압강하 증상과 심정지가 있어 심폐소생술을 시행하였다. 환자는 결국 추가적인 치료에 이르지 못하고 심폐소생술 후 사망하였다. 본원 응급실 내원 12시간 이내에 사망하였다.

고 찰

담낭십이지장 누공은 담관장관 누공의 가장 흔한 형태이다(61~77%).⁴ 수술과 관련이 없는 자발적 담관장관 누공의 원인으로서는 담관계 돌에 의한 경우가 가장 흔하다(90%). 그 외에는 궤양성 질환(6%)과 악성 종양에 의한 경우(4%)가 있다.¹ 이 중 담낭의 악성 종양에 의한 누공 형성의 증례는 국외 문헌 고찰 상으로는 장관 외에도 피부 및 기관자등 다양한 형태의 누공이 보고된 바 있으나 빈도는 매우 드문 것으로 되어 있다.⁵⁻⁷ 국내 증례보고로는 대장내시경 중 발견된 담낭암에 의한 담낭대장 누공의 사례와 담낭암에 의한 담낭위 누공 및 담낭십이지장 누공의 보고가 있다.⁸⁻¹⁰ 본 증례의 경우 단순 담낭암의 십이지장 침윤에 의한 출혈 및 천공과 담낭십이지장 누공의 형성에 의한 출혈을 감별할 필요가 있다. 환자는 내시경 소견 상으로 출혈 원인 궤양의 주변부로 상피하 종양 양상의 정상점막의 돌출만 관찰되었으며, 악성 종양의 침윤을 의심할만한 내강의 협착 및 점막의 염증 및 악성 변화 소견은 없었다. 또한 CT 영상에서 복강 내 자유공기(free-air)가 없는 가운데, 담낭 내에 공기음영만 관찰되어 담낭과 십이지장의 비정상적인 통로 형성을 의심할 수 있어 누공의 사전적 의미에 합당하다 판단하였다. 이외 황색육아종성 담낭염(xanthogranulomatous cholecystitis)과 같이 담낭의 악성 종양으로 오인될 수 있는 염증에 의한 소견의 가능성도 있으나, 간의 원발 부위에 발생한 돌출성 간내전이 종괴(exophatic metastatic mass) 소견을 고려하여 보았을 때 악성 종양의 원발 병소에 의한 병변으로 보는 것이 합당할 것으로 생각된다.¹¹

담낭십이지장 누공의 전형적인 임상적 증상과 징후는 불분명하다. 만성적인 담관계의 질환에 의한 증상과 감별되지 않으며, 이전에 담관돌의 기왕력, 잦은 담관염, 여성, 고령이 위험인자로 알려져 있다.⁵ 진단으로는 바륨 조영 검사나 CT 검사, 초음파, 자기공명영상 등을 이용할 수 있으며, 이 중 특히 CT 검사를 이용하며 비침습적으로 담관계 내의 공기음영이 동반된 누공을 확인함으로써 진단할 수 있다. 하지만 증상의 다양성과 불분명함으로 인해 수술에 앞서 진단되는 경우는 8~17%에 불과하

다.³ 이러한 증상의 비특이성과 관련하여 간담도계질환의 증상 및 징후를 보이는 가운데, 상부위장관 출혈의 증상이 같이 있는 경우 상기 질환을 항상 염두에 두어야 한다.

일반적인 담낭십이지장 누공의 경우 담낭염에 대한 수술적 치료와 함께 치료가 가능하지만,¹² 출혈이 동반된 경우 이에 대한 치료가 먼저 필요하다. 담낭십이지장 누공에 의한 출혈의 경우 변연부 궤양에 의한 출혈과, 간 동맥(hepatic artery)이나 담낭 동맥(cystic artery)의 동맥류 파열(anerysm rupture)에 의한 경우가 많다.¹³ 내시경적 지혈이나 보존적인 치료로 좋아지는 경우가 드물고 대부분 수술적 치료나 경우에 따라 경동맥 색전술의 치료가 필요한 경우가 있어 적절한 초기 진단이 중요하다.¹⁴ 국내에서는 2018년 담석급성 담낭염과 담낭십이지장 누공이 형성된 환자에 있어 담낭 동맥으로부터의 출혈에 대해 혈관색전술을 통해 지혈 성공한 사례보고가 있다.¹⁵ 특히 급변 증례와 같이 위 내시경만으로는 비전형적인 소견으로 진단이 어려운 경우가 많아 조기에 조영 CT와 같은 다양한 방법을 이용한 진단적 접근이 중요하다.^{16,17}

요약하면 저자는 비특이적인 십이지장 궤양 형태의 출혈에 대해 CT 검사 결과 담낭의 악성 종양에 의한 담낭십이지장 누공 출혈로 진단된 예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

CONFLICT OF INTEREST

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

ORCID

Min Woo Seo <https://orcid.org/0000-0001-6818-5505>

REFERENCES

1. Yamashita H, Chijiwa K, Ogawa Y, Kuroki S, Tanaka M. The internal biliary fistula--reappraisal of incidence, type, diagnosis and management of 33 consecutive cases. *HPB Surg* 1997;10: 143-147.
2. Raiford TS. Intestinal obstruction due to gallstones. (Gallstone ileus). *Ann Surg* 1961;153:830-838.
3. Crespi M, Montecamozzo G, Foschi D. Diagnosis and treatment of biliary fistulas in the laparoscopic era. *Gastroenterol Res Pract* 2016;2016:6293538.
4. Lee SB, Ryu KH, Ryu JK, et al. Acute acalculous cholecystitis associated with choecystoduodenal fistula and duodenal bleeding. A case report. *Korean J Intern Med* 2003;18:109-114.

5. LeBlanc KA, Barr LH, Rush BM. Spontaneous biliary enteric fistulas. *South Med J* 1983;76:1249-1252.
6. Kimura Y, Yamashita Y, Itai R, et al. A case of gallbladder carcinoma following cholecystogastric fistula. *Nihon Shokakibyo Gakkai Zasshi* 2014;111:956-965.
7. Hatakeyama K, Nagakawa T, Suga T, et al. Carcinoma of the gallbladder which progress on the mucosa of choledochocolonic fistula. *Nihon Shokakibyo Gakkai Zasshi* 2009;106:1063-1069.
8. Cho SK, Ko YB, Park SC, et al. Squamous cell carcinoma of the gallbladder presenting with a cholecystoduodenal fistula. *Keimyung Med J* 2016;35:39-43.
9. Ha GW, Lee MR, Kim JH. Cholecystocolic fistula caused by gallbladder carcinoma: preoperatively misdiagnosed as hepatic colon carcinoma. *World J Gastroenterol* 2015;21:4765-4769.
10. Lee CJ, Jung J. Primary squamous cell carcinoma of the gallbladder forming a cholecystogastric fistula. *Korean J Gastrointest Endosc* 2010;40:285-289.
11. Suzuki H, Wada S, Araki K, et al. Xanthogranulomatous cholecystitis: difficulty in differentiating from gallbladder cancer. *World J Gastroenterol* 2015;21:10166-10173.
12. Latic A, Latic F, Delibegovic M, Samardzic J, Kraljik D, Delibegovic S. Successful laparoscopic treatment of cholecystoduodenal fistula. *Med Arh* 2010;64:379-380.
13. Whitman EJ, Buie LA Jr, Huizenga KA, Waugh JM. Cystic artery--cystic duct fistula: an unusual cause of gastrointestinal hemorrhage; report of case. *Proc Staff Meet Mayo Clin* 1960;35:551-554.
14. Park JM, Kang CD, Kim JH, et al. Cholecystoduodenal fistula presenting with upper gastrointestinal bleeding: a case report. *World J Clin Cases* 2021;9:410-415.
15. Kim DH, Kim TH, Kim CW, et al. A ruptured cystic artery pseudoaneurysm with concurrent cholecystoduodenal fistula: a case report and literature review. *Korean J Helicobacter Up Gastrointest Res* 2018;18:135-141.
16. Kim BY, Kim KB. Primary aortoduodenal fistula causes massive melena: a case report. *Korean J Gastroenterol* 2021;77:132-135.
17. Mohammed N, Godfrey EM, Subramanian V. Cholecysto-duodenal fistula as the source of upper gastrointestinal bleeding. *Endoscopy* 2013;45(Suppl 2)UCTN:E250-E251.