

베체트병 환자의 복부 가성 대동맥류 혈관 내 스텐트 그라프트 치료

부산대학교 의과대학 부산대학교병원 ¹순환기내과, ²흉부외과

장혜윤¹ · 최종현¹ · 남윤정¹ · 전무송¹ · 이해원¹ · 김상필² · 이한철¹

Endovascular Treatment of an Abdominal Aortic Pseudoaneurysm in a Patient with Behçet's Disease

Hye Yoon Jang¹, Jong Hyun Choi¹, Yoon Jeong Nam¹, Moo Song Jeon¹, Hye Won Lee¹, Sang Pil Kim², and Han Cheol Lee¹

¹Division of Cardiology, Departments of Internal Medicine and ²Thoracic and Cardiovascular Surgery, Pusan University Hospital, Pusan National University School of Medicine, Busan, Korea

Behçet's disease shows systemic involvement, including mucocutaneous, ophthalmical, neurological, pulmonary, gastrointestinal, urogenital, mucoskeletal, and cardiovascular disorders. Aneurysmal changes develop in 65% of patients with arterial involvement and are associated with a poor prognosis. Although many attempts have been made to surgically manage these serious arterial lesions, several reports have shown a high recurrence rate and operation-related complications. Stent-graft placement has been indicated for the treatment of pseudoaneurysms and aneurysms in patients with a high surgical risk, including those with Behçet's disease. We herein describe an abdominal aortic pseudoaneurysm in a patient with Behçet's disease that was successfully treated with stent-graft insertion without an endoleak after 36 months of follow-up. (Korean J Med 2014;86:494-499)

Keywords: Aortic aneurysm; Behçet's disease; False aneurysm; Stent

서론

베체트병은 반복적인 구강 및 성기의 궤양과 홍채염 또는 포도막염, 특징적 피부 소견을 주증상으로 하는 질병군으로, 3대 주징후 이외에도 근골격계, 소화기계, 호흡기계, 심혈관계, 신경계 등 전신적인 침범을 보이는 질환이다[1]. 베체트병에 기인한 혈관병증은 동정맥의 혈전증(thrombosis), 혈전정맥염

(thrombophlebitis), 동맥류(aneurysm), 가성 대동맥류(pseudoaneurysm) 및 동맥폐색(occlusion)의 임상상으로 나타난다[2]. 이 가운데 동맥혈관성 합병증은 그 발생 빈도가 3-5% 가량이며 폐색보다 동맥류 및 가성 동맥류 형성이 다수를 차지한다. 베체트병 환자의 혈관은 병태생리학적으로 만성적 염증을 보인다. 이로 인하여 동맥류를 외과적으로 치료한 뒤 문합 부위에서 가성 동맥류 형성 및 혈관벽 괴사, 천공 등의

Received: 2013. 4. 10

Revised: 2013. 6. 18

Accepted: 2013. 7. 10

Correspondence to Han Cheol Lee, M.D., Ph.D.

Division of Cardiology, Department of Internal Medicine, Pusan University Hospital, Pusan National University School of Medicine, 179 Gudeok-ro, Seo-gu, Busan 602-739, Korea

Tel: +82-51-240-7217, Fax: +82-51-240-7796, E-mail: glaraone@hanmail.net

Copyright © 2014 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.

합병증이 자주 발생하게 된다[3].

이 때문에 스텐트 이식편(stent-graft)을 이용한 혈관 내 대동맥류 수술(endovascular aortic repair, EVAR)이 대안으로 제시되었다. 베체트병에 병발된 복부 대동맥류는 치료가 적기에 이루어지지 않을 경우 매우 불량한 예후를 보여 임상적으로 중요도가 높다. 하지만 낮은 발생 빈도와 명확한 치료 지침의 부재로 인하여 많은 임상 의들이 어려움을 겪고 있다. 저자들은 베체트병으로 진단된 46세 남자 환자에서 발생한 10 cm 이상의 거대 복부 가성 대동맥류(huge pseudoaneurysm of abdominal aorta)를 혈관 내 스텐트 이식편 시술로 치료한

후 3년간 안정적으로 유지된 1예를 보고한다.

증 례

46세 남자가 6개월 전부터 점차 악화되는 복통과 복부 팽만감을 주소로 본원에 내원하였다. 가족력은 특이사항이 없었다. 20갑년의 흡연력이 있고 10년 전 베체트병을 진단받고 외래 관찰 중이었다. 9년 전 복통으로 촬영한 전산화 단층촬영(computed tomography, CT)에서 신동맥(renal artery) 하방부터 총 장골동맥 분지(common iliac artery bifurcation) 상방

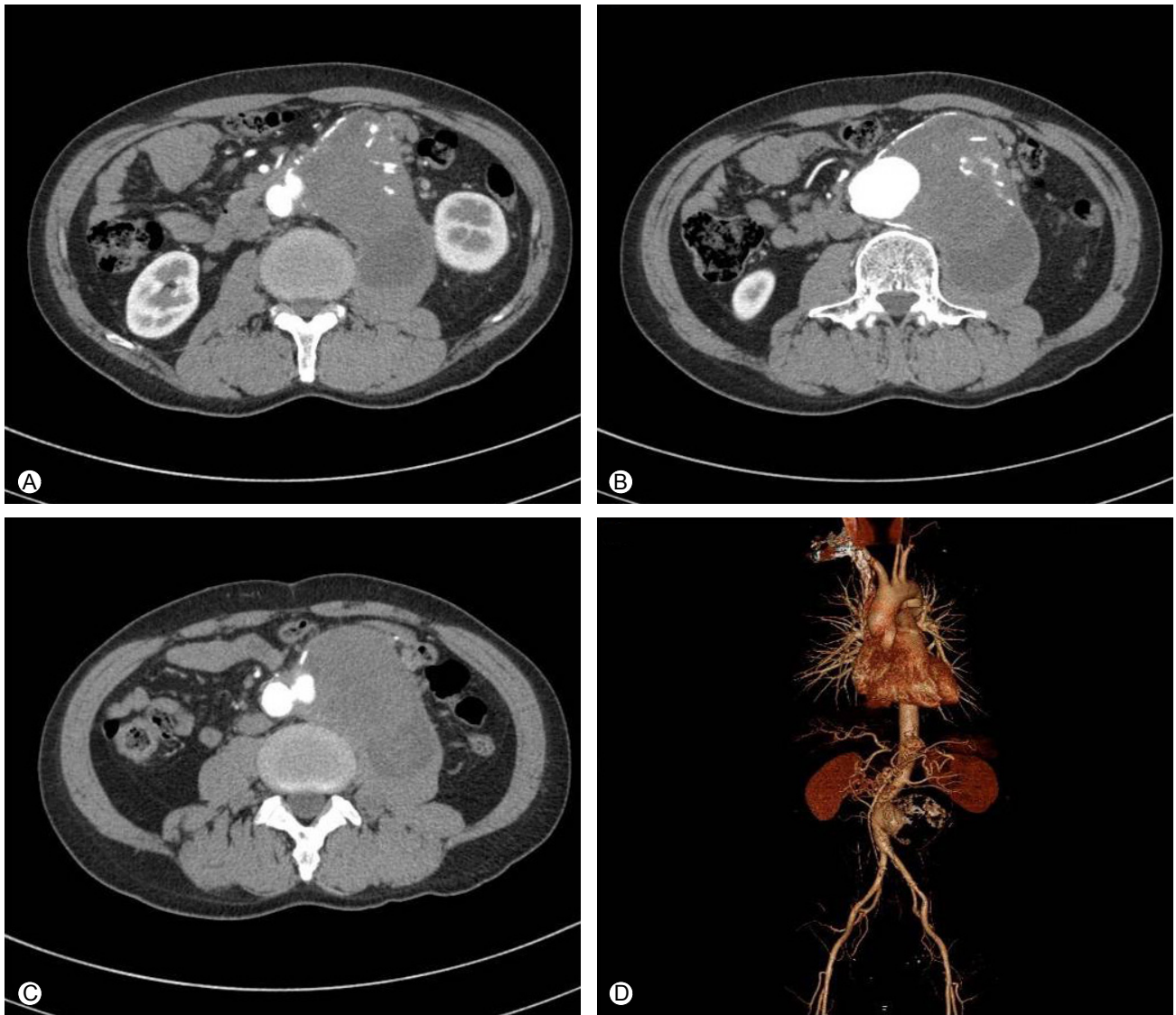


Figure 1. Computed tomography (CT) image (A-C) and reconstructed three-dimensional (3-D) image (D) showing a dilatated aorta due to an infrarenal type abdominal aortic pseudoaneurysm about 11 cm in diameter.

3 cm 위치에 이르는 최장 직경 3.7 cm 가량의 가성 대동맥류가 발견되었으나 당시 생체징후가 안정적이었으며 복통 등의 증상이 소실되어 경과 관찰하기로 하고 퇴원하였고 이후 주기적으로 CT를 촬영하였다. 환자는 2002년 1월, 2005년 6월 및 2010년 10월 CT를 촬영하였다. 각 CT 촬영 시마다 가성 대동맥류의 크기는 점차적으로 증가하는 소견을 보였다. 2010년 11월 환자는 복통이 악화되어 본원 순환기 내과로 입원하였다. 입원 시 환자의 활력 징후는 혈압 150/70 mmHg, 맥박 60회/분, 호흡 20회/분, 체온 36°C였다. 신체 검사에서 특이 소견은 발견되지 않았다. 입원 당시 검사 소견에서 혈색소 13.9 g/dL, 백혈구 5,470/mm³, 혈소판 141,000/mm³였으며

생화학 검사에서 혈청 요소 질소(BUN) 13.4 mg/dL, 혈청 크레아티닌 0.77 mg/dL였다. C 반응성 단백(CRP) 및 적혈구침강속도(ESR)는 각각 0.03 mg/dL 및 6 mm/hr로 베체트병의 활성도는 기존의 복용 중이던 prednisolone 7.5 mg, azathioprine 50 mg으로 안정적으로 유지되는 상태였다. 입원 시 체크한 CT에서 2002년 3.7 cm 크기였던 신동맥 하방의 가성 대동맥류는 그 크기가 10.6 × 11.3 cm로 크게 증가되어 있었다(Fig. 1). 환자의 거대 가성 대동맥류는 외과적 수술로써 접근 시 베체트병의 만성적 혈관 염증 상태로 인하여 술 후 합병증의 발생 위험이 높을 것으로 판단되었다. 따라서 본 저자들은 혈관 내 스텐트 이식편 시술을 통한 치료 방법을 선택하였다. 입원

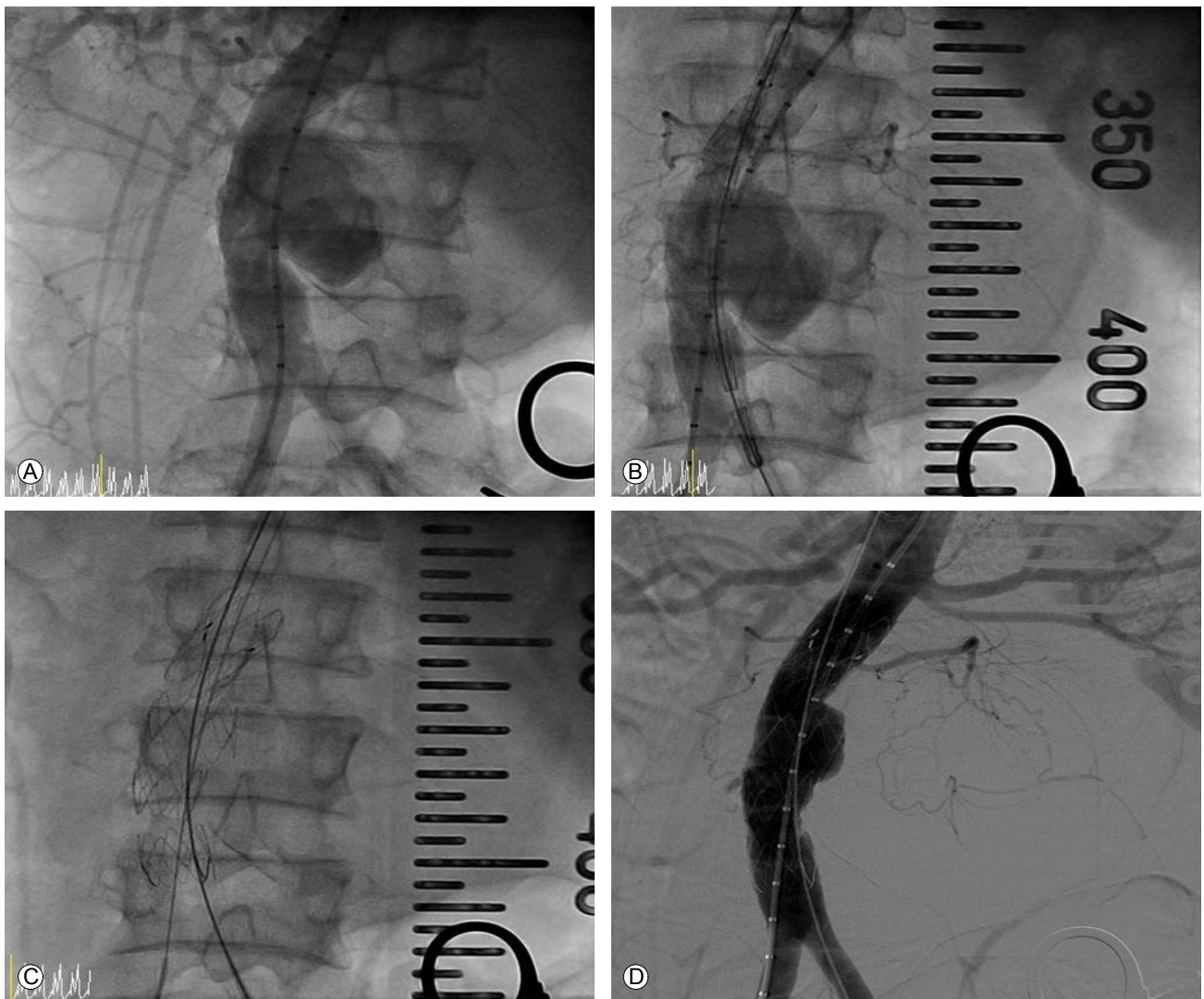


Figure 2. (A-D) An aortic stent graft was inserted into the aortic pseudoaneurysm. Aortography showed a huge saccular pseudoaneurysm in the infrarenal abdominal aorta. A stent graft (22 mm × 8 cm) was inserted into the aortic pseudoaneurysm.

2일째, 대동맥 조영술 및 혈관 내 스텐트 이식편 삽입술을 시행하였다. 시술은 전신 마취 상태로 진행하였다. 왼쪽 대퇴동맥을 외과적 혈관 노출(surgical cutdown)을 하였고 오른쪽 대퇴동맥을 동맥 천자 후 6 French sheath를 넣은 후 marked pigtail (COOK Medical, USA)을 통하여 대동맥 조영술을 실시하여 신동맥 하방 3 cm 부위에서 소낭성(Saccular type)의 가성 대동맥류를 확인하였다. 왼쪽 대퇴동맥에 5 French radial sheath를 넣은 후 7 French femoral sheath로 바꾸면서 점차적으로 혈관을 확장시켰고 스텐트 이식편의 원활한 통과를 위

하여 035-inch Amplatz stiffwire를 상행대동맥까지 넣은 후에 16 French inner sheath를 왼쪽 장골동맥까지 올리면서 스텐트 이식편이 잘 통과할 수 있도록 혈관을 확장하였다. 신동맥 하방부터 총 장골동맥 분지부까지 가성 대동맥류를 덮는 직경 22 mm, 길이 8 cm의 스텐트 이식편(SEAL[®] stent graft, S&G Biotech., Seoul, Korea)을 삽입하였다(Fig. 2). 스텐트 이식편의 시술 후 대동맥 조영술에서 endoleak 없이 복부 대동맥의 혈류가 회복된 것을 확인하고 성공적으로 시술을 마쳤다. 시술 이후 aspirin, clopidogrel을 항혈소판 제제로 복용하

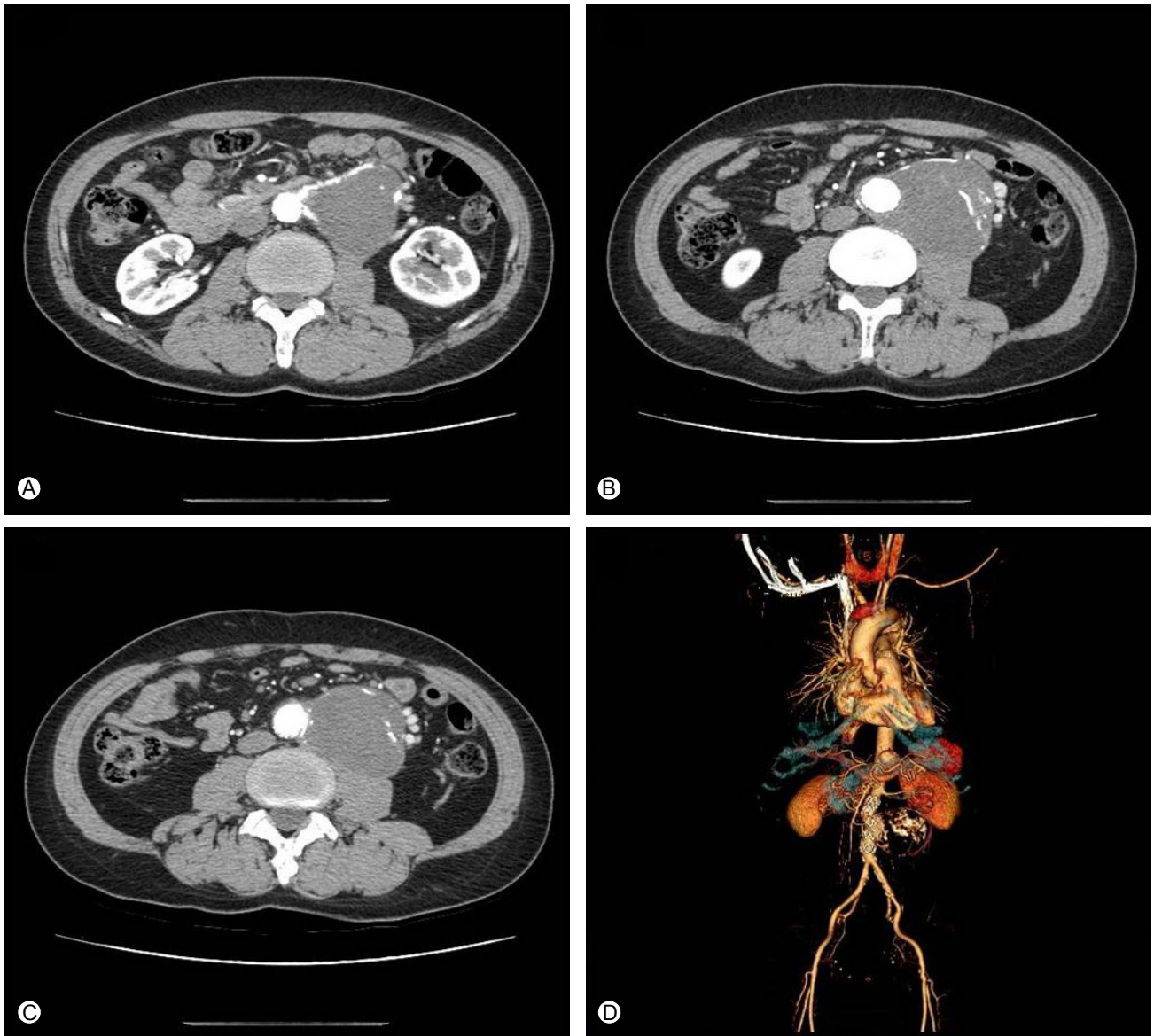


Figure 3. Follow-up CT and 3-D reconstructed image (A-D) after 36 months showed that the aortic pseudoaneurysm was repaired without an endoleak by the endovascular stent graft. In addition, the thrombosed aneurismal sac decreased to 8.5 cm in diameter.

였다. 환자의 베체트병 활성도는 기존의 약물 치료로 유지가 잘 되었으므로 코르티코스테로이드 및 면역억제제는 기존 용량을 유지하였다. 술 후 3일째 CRP가 7.79 mg/dL까지 상승하였으나 발열 등 감염의 징후는 보이지 않았다. 시술 후 12일째 합병증 없이 퇴원하였고 36개월째 컴퓨터 혈관조영술(CT angiography)을 촬영하였으며 Endoleak은 없었고 확장된 복부 대동맥 내강의 크기도 11 cm에서 8.5 cm로 감소하였다(Fig. 3). 현재까지 3년 동안 복통 등의 임상증상 호소 없이 외래 추적 관찰 중이다.

고 찰

베체트병에서 발생한 대동맥류와 가성 대동맥류는 동맥 혈관벽의 혈관염(vasculitis)이 주요 병태생리이며 퇴행성 대동맥류(degenerative aneurysm)와는 다른 특징을 가진다. 퇴행성 대동맥류에 비해 비교적 젊은 환자에게 이환이 되며 신동맥 상방에 위치하는 소낭성(saccular)동맥류가 보다 흔하다. 베체트병 환자의 동맥류는 다발성으로 발생하는 경우도 흔하며 응급 상황으로 진행되는 경우가 많아 베체트병의 혈관성 합병증은 적극적 치료가 필요하다[4].

베체트병에서 발생한 복부 대동맥류의 치료로 외과적 접근 방법을 대신하여 혈관 내 스텐트 이식편 시술의 안정성과 효용성이 여러 연구를 통해 증명되고 있다. 혈관 내 시술은 외과적 수술에 비해 시술 시간 및 재원 기간이 짧고 술 중 출혈 및 감염도 적은 것으로 나타났다. 외과적 수술 후 사망률은 저자마다 이견이 존재하지만 1.6%에서 7.6%에 이르는 것으로 보고된다[5-7]. 그러나 혈관 내 스텐트 이식편 시술 후 사망률은 0.6-3.5%로 수술적 방법보다 낮고 시술 성공률은 80-90%로 높게 보고되고 있다. 베체트병은 만성적 전신 염증성 질환이므로 베체트병에서 외과적 수술로써 가성 동맥류를 제거하고 인조혈관으로 연결하였을 때, 이물질에 대한 혈관의 과도한 염증 반응으로 문합 부위의 가성 동맥류 형성 및 혈관벽 괴사, 천공 등의 합병증이 자주 발생하게 된다[3]. 이로 인하여 재수술을 하는 경우 혈관의 조직 내 유착이 심하여 재수술이 어렵고 반복된 재발의 위험성이 있다. 그리고 면역억제제와 스테로이드를 사용하는 환자의 외과적 수술 시 감염의 위험성이 증가하고 수술 봉합부위의 회복에도 지연이 있을 수 있다.

혈관 내 스텐트 이식편 시술을 통한 치료에도 제한점은

존재한다. 우선 장기간 스텐트를 혈관 내 거치하는 것에 관한 안정성 평가가 현재까지 충분히 이루어지지 않은 상태다. Endoleak, 스텐트 이식편의 이동(migration), 스텐트 이식편의 부서짐(fracture), 구부러짐(kinking) 또한 발생 가능하다. 그리고 외과적 수술보다는 빈도가 낮지만 약 1년 뒤 재시술이 필요한 경우가 약 20% 가량으로 보고된 바 있다[8]. 베체트병에서 혈관 합병증을 치료할 때의 치료 시기에 대해서는 아직 이론이 많다. 혈관 합병증이 심각하지 않다면 ESR, CRP가 면역억제제나 스테로이드를 사용하여 정상화된 후에 시술이나 수술을 하는 것이 시술 후 합병증과 재발의 위험성을 줄여주는 것으로 알려져 있다[9]. 시술 후에도 베체트병의 활성도를 조절하는 것이 재발을 줄이는 중요한 인자로 알려져 있다[10]. 베체트병은 모든 혈관에 이환 가능한 염증성 질환이므로 경과 관찰 중에 경동맥, 쇄골동맥, 무명동맥, 상완동맥, 흉부대동맥, 장골동맥 등에 동맥류나 가성 대동맥류가 생기는 것에 대하여 주의하여 관찰하여야 한다. 본 증례에서는 ESR, CRP가 정상 수치였고 prednisolone, azathioprine 유지 용량으로 질병의 활성도를 반영하는 염증 지표가 잘 유지되었고 가성 대동맥류의 크기가 11 cm 이상으로 파열의 위험이 커서 혈관 내 스텐트 이식편 시술을 시행하였다. 대동맥류 스텐트 이식편 시술 시에는 장골동맥까지 2, 3개로 분리된 스텐트 이식편을 시술하는 것이 일반적인 방법이지만 본 증례의 경우 가성 대동맥류 상하방 대동맥에 스텐트가 부착할 수 있는 부위(landing zone)가 3 cm 이상으로 충분하였고 베체트병의 특성상 직경이 작은 혈관에 스텐트 이식편을 넣을 경우 재협착, 문합 부위의 가성 동맥류 형성, 혈관벽 괴사, 천공 합병증이 증가할 위험성 때문에 한 개로 된 스텐트 이식편을 넣었다. 이 환자는 3년 동안 prednisolone 7.5 mg과 azathioprine 50 mg으로 베체트병의 활성도는 잘 유지가 되었다. 향후 지속적으로 유지 용량의 같은 약제를 사용할 예정이다. 이 환자에서 베체트병의 활성도가 다시 증가하면 대동맥의 염증이 재발하여 가성 대동맥류의 악화가 예상되기 때문에 스텐트와 면역억제제는 계속 투여하는 것이 타당한 것으로 판단된다. 향후 추적관찰 계획은 ESR, CRP는 3개월마다 검사하여 베체트병의 활성도를 평가 예정이고 컴퓨터 혈관조영술은 복부 가성 대동맥류의 재발을 평가하기 위하여 1년마다 검사할 예정이다.

베체트병에 동반하는 복부 가성 대동맥류에 대한 치료는 현재까지의 자료를 통하여서는 각각의 환자 경우에 따라 효

올적인 치료의 방법과 시기를 선택하는 것이 바람직할 것으로 판단되고 베체트병에서 혈관 내 스텐트 이식편 시술의 장기 결과에 대해서는 더 많은 연구가 필요할 것으로 사료된다.

요 약

베체트병에서 발생하는 복부 가성 대동맥류는 그 빈도는 드물지만 주요 사망 원인 중의 하나로 임상적 중요도가 높은 혈관염 합병증이다. 만성적인 혈관의 염증상태로 인하여 수술적 치료 후 재발 및 가성 대동맥류의 형성 빈도가 높아 스텐트 이식편을 이용한 비침습적 방법이 대안으로 제시되고 있다. 저자들은 베체트병으로 진단받은 46세 남자 환자에서 발생한 거대 복부 가성 대동맥류를 수술 위험도와 재발의 위험을 고려하여 스텐트 이식편 삽입으로 3년간 효과적으로 치료된 1예를 경험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어: 대동맥류; 베체트병; 가성 대동맥류; 스텐트

REFERENCES

1. Sakane T, Takeno M, Suzuki N, Inaba G. Behçet's disease. N Engl J Med 1999;341:1284-1291.
2. Park JH, Han MC, Bettmann MA. Arterial manifestations of Behçet disease. AJR Am J Roentgenol 1984;143:821-825.
3. Sasaki Sh, Yasuda K, Takigami K, Shiiya N, Matsui Y, Sakuma M. Surgical experiences with peripheral arterial aneurysms due to vasculo-Behçet's disease. J Cardiovasc Surg (Torino) 1998;39:147-150.
4. Okita Y, Ando M, Minatoya K, Kitamura S, Matsuo H. Multiple pseudoaneurysms of the aortic arch, right subclavian artery, and abdominal aorta in a patient with Behçet's disease. J Vasc Surg 1998;28:723-726.
5. Cruz CP, Drouilhet JC, Southern FN, Eidt JF, Barnes RW, Moursi MM. Abdominal aortic aneurysm repair. Vasc Surg 2001;35:335-344.
6. Blum U, Voshage G, Lammer J, et al. Endoluminal stent-grafts for infrarenal abdominal aortic aneurysms. N Engl J Med 1997;336:13-20.
7. Erpenbach S, Arlart IP, Tremmel-Lehnert C, Hupp T. Abdominal aortic aneurysm in Behçet's disease: treatment with endovascular stent graft. Eur Radiol 2001;11:2539-2542.
8. Collin J, Murie JA. Endovascular treatment of abdominal aortic aneurysm: a failed experiment. Br J Surg 2001;88: 1281-1282.
9. Alpagut U, Ugurlucan M, Dayioglu E. Major arterial involvement and review of Behçet's disease. Ann Vasc Surg 2007;21:232-239.
10. Kwon Koo B, Shim WH, Yoon YS, et al. Endovascular therapy combined with immunosuppressive treatment for pseudoaneurysms in patients with Behçet's disease. J Endovasc Ther 2003;10:75-80.