

A Case of Henoch Schönlein Purpura with Gastrointestinal Bleeding Due to Jejunal Ulcer by Capsule Endoscopy

Yong Kang Lee¹, Tak Keun Oh¹, Ara Choi¹, Ji Hoon Lee¹, Mi Na Kim¹, Sung Pil Hong^{1,2}

¹Department of Internal Medicine, ²Division of Gastroenterology, College of Medicine, Yonsei University, Seoul, Korea

알레르기성 자반증 환자에서 캡슐내시경으로 공장궤양을 진단한 1예

이용강¹ · 오탁근¹ · 최아라¹ · 이지훈¹ · 김미나¹ · 홍성필^{1,2}

¹연세대학교 의과대학 내과부, ²소화기내과학교실

Henoch-Schönlein purpura (HSP) is the most common form of systemic vasculitis in children. Palpable purpura, arthralgia, arthritis, abdominal pain and renal involvement are the major clinical manifestations. Gastrointestinal involvement is related with abdominal pain and bleeding.

We described a 71 year-old female experienced acute exacerbation of HSP presented with gastrointestinal bleeding. She was hospitalized for hematemesis and diagnosed duodenitis by esophagogastroduodenoscopy (EGD). Duodenitis was improved at EGD checked in 7 days. She still complained of melena and abdominal pain. There were no abnormal findings at sigmoidoscopy. Jejunal ulcer and purpura were diagnosed by capsule endoscopy. Symptoms were relieved after administration of systemic steroid. But she needed renal replacement therapy for 3 months.

Small bowel ulcer diagnosed by capsule endoscopy in patients with HSP was rarely described in Korean literature. This case suggests that capsule endoscopy have a role in diagnosis of small bowel ulcer and its severity in HSP with gastrointestinal symptom.

Key Words: Capsule endoscopy, Gastrointestinal hemorrhage, Henoch-Schönlein pupura.

아나필락시스성 자반증(Henoch-Schönlein purpura)은 가장 흔한 형태의 전신성 혈관염으로, 약 90%가 소아기에 발병하며, 여아와 남아의 유병률의 비율은 1.2:1에서 1.8:1까지 보고되고 있다.¹ 촉진성 자반(palpable purpura), 관절통이나 관절염, 복통, 신장침범의 4가지 증상이 아나필락시스성 자반증 환자에게 가장 흔하게 발생하는 증상으로, 예후는 비교적 양호하다. 성인의 경우 임상적 특징은 청소년기에 발병하는 경우와 다소 차이가 있다. 성인의 경우 장증첩증은 거의 발생하지 않고, 신장침범이 조금 더 흔한 것으로 보고되었다.²

이전의 논문에 의하면 아나필락시스성 자반증의 소화기계 침범은 복통, 설사, 혈변 등의 다양한 형태로 나타날 수 있으며 궤양이 발생하는 경우 식도나 위보다 소장에서 호발하는 것으로 보고하였다.³ 아나필락시스성 자반증에 의한 소화기계 출혈이나 궤양은 전신혈관 침범에 의한 것으로 소장에 호발하는 특성상 캡슐내시경 검사가 진단에 도움이 되며,⁴ 국내에서도 아나필락시스성 자반증의 소화기계 침범에 의한 소장 궤양을 캡슐 내시경으로 보고한 바 있다.⁵

이에 저자들은 국내에서는 두 번째로 성인 아나필락시스

Corresponding Author: Sung Pil Hong, Department of Internal Medicine, College of Medicine, Yonsei University, 250 Seongsanno, Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea
TEL: 010-8940-5775 FAX: 02) 393-6884 E-mail: sphong@yuhs.ac

Received: September 28, 2011
Revised: November 9, 2011
Accepted: November 28, 2011

스성 자반증 환자에서 캡슐 내시경으로 공장의 궤양을 진단하고 스테로이드 치료를 통해 위장관 출혈은 비교적 조절이 잘되었으나, 급성신손상으로 일시적이었지만 혈액투석이 필요하였던 증례를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자: 김OO, 71세, 여자

주소: 토혈

현병력: 본 71세 여자환자는 내원 당일 200 mL가량의 토혈을 주소로 응급실 경유하여 입원하였다.

과거력: 환자는 40년 전 폐결핵을 진단받고 치료받았으며, 내원 10년 전 중간 뇌동맥 경색으로 인한 뇌졸중으로 입원치료 받았고 당시 고혈압 진단하에 항고혈압약제 투약을 시작하였다. 내원 3년 전 손발에 다양한 크기의 홍반성 자반성 수포 및 구진의 피부 병변에서 시행한 조직검사서 백혈구 파쇄성 혈관염(Leukocytoclastic vasculitis) 소견을 보여 아나필락시스성 자반증을 진단받았다. 일시적으로 전신 스테로이드 치료 후 피부병변 호전되어 피부과 외래에서 정기적으로 추적관찰 중이었다.

내원 2년 전에는 간헐적인 흉통으로 시행한 관상동맥 조영술 상 경도의 관동맥 폐쇄성 질환을 진단받고 약물치료 중이었다. 당시 심방세동을 진단받고 뇌졸중의 병력을 고려하여 항응고제인 와파린을 투약하였다. 이외에 음주

력이나 흡연력은 없었다.

가족력: 특이 사항은 없었다.

신체검사소견: 환자는 급성 병색을 보였으며, 혈압 144/72 mmHg, 맥박수 분당 102회, 호흡수 분당 16회이었으며, 체온은 37.1 °C였다. 의식은 정상이었고, 피부는 따뜻하고 건조하였으며, 입술과 혀는 건조하였다. 결막은 창백하지 않았으며, 공막의 황달은 관찰되지 않았다. 흉부 청진상 호흡음은 정상이었으며, 수포음은 청진되지 않았고, 심잡음은 들리지 않았다. 복부는 부드럽고 편평하였으며 압통이나 반발통은 관찰되지 않았다.

혈액검사소견: 말초 혈액 검사상 백혈구 17400/mm³ (중성구 87.3%, 림프구 6.3%, 단핵구 3.3%, 호산구 0.2%), 혈색소 14.2 g/dL, 헤마토크릿 41.8 %, 혈소판 419,000/mm³였다. 혈청 생화학검사상 전해질 나트륨 135 mEq/L, 칼륨 3.9 mEq/L, 염소 104 mEq/L, 총 CO₂ 24 mmol/L, 혈액요소질소 66.6 mg/dL, 크레아티닌 1.59 mg/dL, 글루코스(Glucose) 145 mg/dL, 칼슘 8.2 mg/dL, 총단백 5.2 g/dL, 알부민 2.5 g/dL, AST/ALT 17/6 IU/L, 아밀라아제(Amylase)/지질분해효소(Lipase) 103/78 U/L였다. 혈청 프로트롬빈 타임은 11.5 sec 활성화된 부분 트롬보플라스틴 타임은 25.1 sec였다. 백혈구 침강속도 14 mm/hr (참고치 0-20) C-반응단백은 54.7 mg/L (참고치 0-8)로 증가되어 있었다.

바이러스성 간염 표지자인 B형 간염 표면항원은 음성, B형 간염 표면 항체는 음성, C형 간염 항체는 음성이었다.

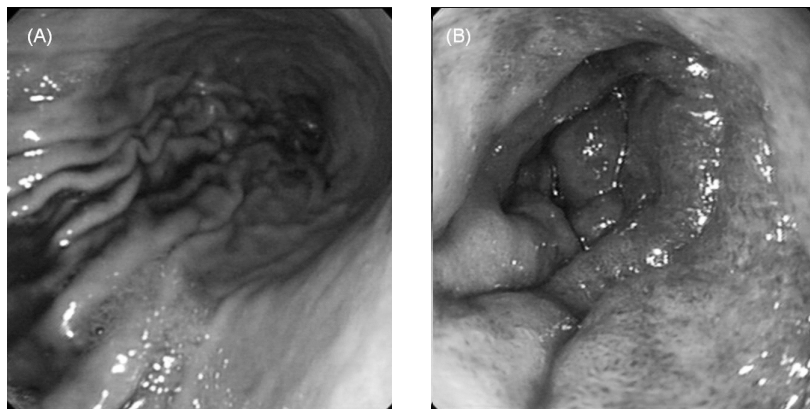


Fig. 1. Esophagogastroduodenoscopy (EGD) findings. (A) EGD showed mild chronic superficial gastritis (B) EGD showed severe duodenitis from bulb to 2nd portion of duodenum.

류마티오이드양 인자는 20.0 IU/mL 미만이었으며, 항핵항체는 음성, 항카디오리핀 항체는 음성, 항 CCP항체(Anti-cyclic citrullinated peptide antibody) 음성, P-항중성구세포질(P-ANCA) 항체 음성, C-항중성구세포질(C-ANCA) 항체 음성이었다.

무작위 소변 검사상 단백뇨 2+ 혈뇨 2+ 당뇨 - 소견을 보였으며, 소변 단백/크레아티닌 비는 6.01이었다.

방사선 소견: 단순 복부 X-선 촬영상 특이 소견은 관찰되지 않았다.

위장관 내시경 소견: 상부 내시경 소견 상 위에 미만성 만성 표재성 위염 및 다발성 미란이 관찰되었고 샘장자구부에서 두 번째 구획까지 중증의 십이지장염이 관찰되었다(Fig. 1). 구불결장경 검사상 횡행결장까지 특이 소견은 관찰되지 않았다.

캡슐내시경 소견: 캡슐 내시경 소견상 공장외부의 궤양과

자반이 관찰되었다(Fig. 2).

병리학적 소견: 내원 3년 전 손발의 피부 병변에서 시행한 조직검사 상 아나필락시스성 자반증에 합당한 백혈구 파쇄성 혈관염 소견을 보였다(Fig. 3).

치료 및 경과: 환자는 토혈을 주소로 응급실 내원하여 시행한 상부내시경에서 중증의 십이지장염이 관찰되었으나 항응고제 중단과 대증치료를 통해 증상이 호전되어 경과관찰 중이었다.

내원 1주일 후 복통과 설사를 호소하였으며, 흑색변이 다시 발생하여 아나필락시스성 자반증의 소화기계 침범에 의한 위장관 출혈로 판단하고 이에 대한 평가 목적으로 복부 전산화 단층 촬영 및 캡슐내시경을 시행하였다. 복부 전산화 단층 촬영에서 상행 결장의 부종이 관찰되었으며 캡슐 내시경 소견상 공장외부의 활동성 궤양 및 자반 소견을 확인할 수 있었다. 이후 관절통을 호소하였고, 하지의 촉

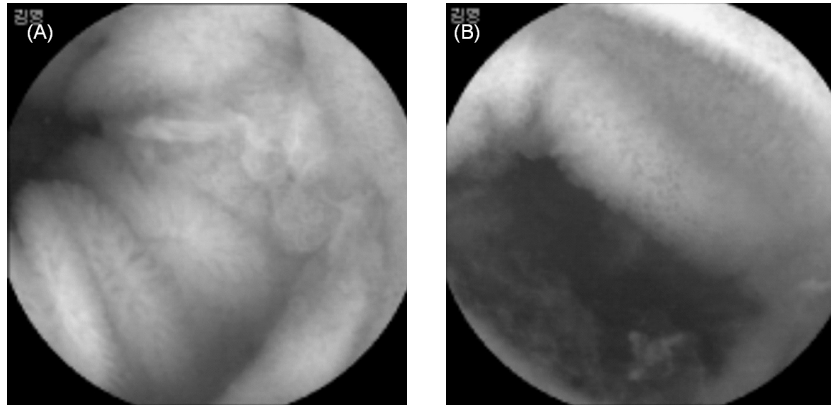


Fig. 2. Capsule endoscopy showed multiple ulcer and erosions, multiple erythematous lesion and ulcer at Jejunum

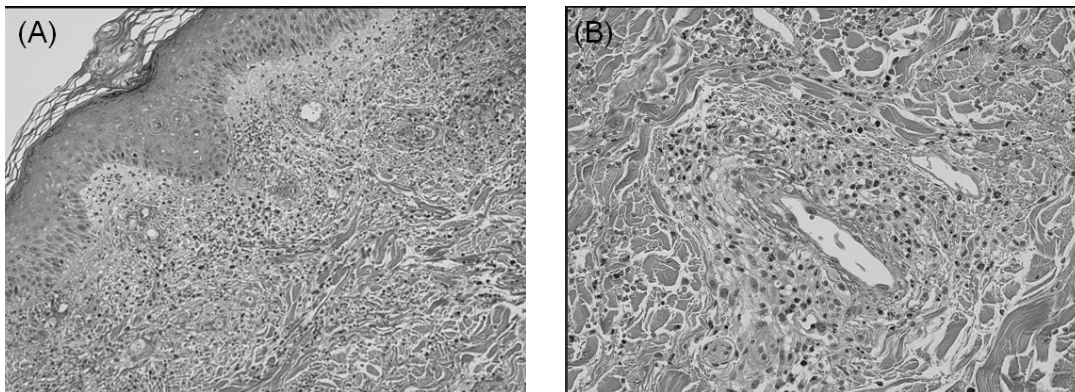


Fig. 3. Light microscopic finding of skin biopsy taken outpatients clinic before 3 years ago. They show leukocytoclastic vasculitis. (A) HE stain x 40HE (B) stain x 200

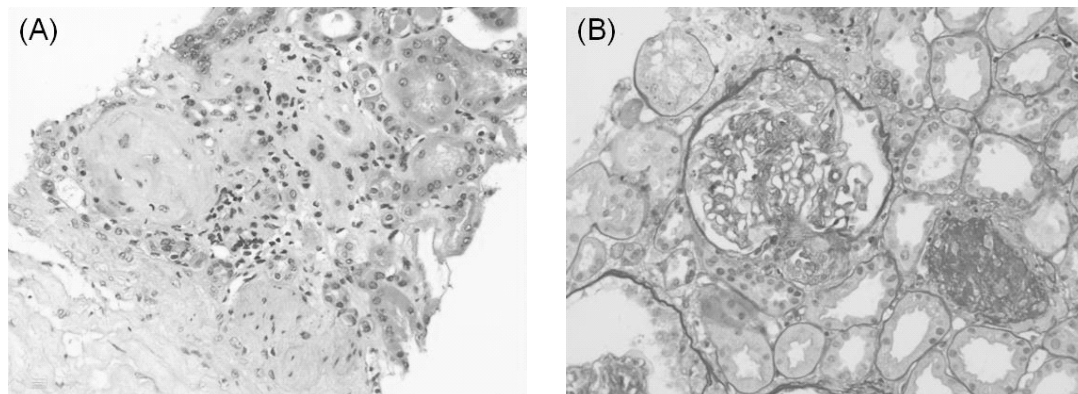


Fig. 4. light microscopic finding of renal biopsy. (A) glomeruli show global sclerosis. And tubular atrophy was seen (B) glomeruli associated with fibrocellular/cellular crescents. The glomerular basement membrane is not thickened

진성 자반이 체부로 진행되는 양상이 관찰되었다. 병력 및 호소하는 증상 종합하였을 때 아나필락시스성 자반증의 전신 침범의 악화로 판단되어 프레드니솔론(prednisolone) 1 mg/kg으로 전신성 스테로이드 치료를 시작하였다. 스테로이드 치료 후 위장관 출혈 및 복통, 설사 등의 소화기계 증상과 축진성 자반 및 관절통의 증상은 호전되었으나, 급성 신기능 저하 소견이 관찰되었고, 아나필락시스성 자반증의 신침범으로 판단되어 조직검사를 시행하였다. 사구체의 경화, 미세요관 위축 및 반월판 형성 등의 조직소견이 관찰되었다(Fig. 4).

신기능 저하로 경동맥 혈액투석도관 삽입 후 신대체요법으로 3개월 간 혈액투석을 시행하였고 이후 신기능이 호전되어 이후 혈액투석 도관을 제거하고 외래 추적관찰 중이다.

고찰

본 증례는 아나필락시스성 자반의 흔한 네 가지 임상양상 중에서 복통과 위장관 출혈의 소화기계 증상이 다른 전신 증상에 선행하여 나타났으며, 위장관 출혈의 원인이 되었던 소장의 궤양을 캡슐내시경으로 진단하였던 증례이다. 본 증례는 전신 스테로이드 치료 후 위장관계 출혈이나, 복통 및 설사 등의 증상은 비교적 빠르게 호전되었는데 이는 소화기계 증상이 동반된 아나필락시스성 자반의 경우 기존의 국내 보고에서도 스테로이드 치료로 비교

적 위장관계 출혈을 잘 조절할 수 있었다는 보고와 일치한다.⁶

15-35%가량의 아나필락시스성 자반증 환자에서 소화기계 증상이 다른 증상에 선행하여 나타날 수 있는 것으로 알려져 있다. 보고에 따르면 아나필락시스성 자반증의 소화기계 증상 중 소화기계 출혈은 17.6%에서 발생한다.⁷ 진단 알고리즘은 기존의 위장관 출혈의 진단을 따라 진행한다. 본 증례에서와 마찬가지로 소화기계 출혈의 원인을 찾기 위해 일차적으로 상부내시경 및 대장내시경을 시행하게 된다. 1차 검사에서 출혈의 원인을 찾지 못한 경우 캡슐내시경이나 이중 풍선 소장내시경을 시행하게 된다.

기존의 보고에서 아나필락시스성 자반증 환자를 대상으로 시행한 캡슐내시경 소견상 소장 전반에 걸친 점막의 염증 및 홍조, 부종과 궤양 소견을 보였으며 중간중간 자발적인 출혈 소견이 관찰되었다.⁸ 최근에는 CT검사에서는 발견할 수 없었던 소장의 부종, 자반, 발적 및 미란 등을 캡슐내시경으로 발견할 수 있음을 보고하였다.⁹ 따라서 아나필락시스성 자반증에서 위장관계 출혈을 보이는 경우 캡슐내시경의 역할이 중요하게 부각되고 있다.⁴

본 증례에서는 중증의 십이지장염이 위장관 출혈의 일차적 원인으로 판단되어 치료하였으나 재출혈이 발생하여 캡슐내시경을 시행하였고 국내에서 보고된 이전의 증례에서보다는 경도의 점막 부종과 궤양소견이 관찰되었다.

아나필락시스성 자반증 환자의 대부분은 스테로이드 요법에 반응이 좋으며, 양호한 예후를 보이는 경우가 많

다. 그러므로 소화기계 증상을 동반한 모든 아나필락시스성 자반증 환자에게 캡슐내시경이 필수적인 검사는 아닐 것으로 판단된다. 그러나, 단일기관의 연구이기는 하지만 성인 아나필락시스성 자반증 환자에서 14%가량이 소화기계 질환으로 인하여 사망하였고 흑색변을 보이는 경우 위장관에 대한 평가가 필요하다는 보고가 있었다.¹⁰

본 증례에서도 캡슐내시경을 통해 환자의 소화기계 병변을 확인함으로써 소장 병변에 대한 정확한 파악을 가능하게 하여, 추후 치료방침을 결정할 수 있게 해주는 역할을 충분히 하였다. 그러므로 추후 아나필락시스성 자반증 환자에서 소화기계 병변에 대한 구체적인 기술을 가능하게 하고 치료방침을 정하는데 보조적인 자료로서 역할을 할 수 있을 것으로 판단된다.

아나필락시스성 자반증 환자의 예후는 비교적 양호하지만 이전의 보고에서 다인자 분석상 신기능 부전, 증상 발현시의 단백뇨 유무, 신생검에서 간질의 섬유화정도, 사구체의 경화가 신대체 요법이 필요한 불량한 예후를 보임을 제시하였다. 본 환자에서도 단백뇨 양성, 신기능 부전을 보였다는 점, 병리학적인 소견상에서 사구체의 경화성 변화 등과 같은 소견들을 종합하여 보았을 때 추후 신기능 부전으로 이행될 수 있으므로 이에 대하여 세심한 추적관찰이 필요할 것으로 추정된다.

결론적으로 아나필락시스성 자반증 환자에서 소화기계 출혈을 보이는 경우 캡슐내시경은 비교적 안전한 시술로, 소화기계 궤양 및 미란 등의 병변을 확인할 수 있다. 본 증례와 같이 위장관 출혈을 보였던 환자에서 위내시경 및 대장내시경 등의 1차 검사에서 출혈부위를 발견하지 못하고 소장침범이 의심되는 경우 위장관 궤양 및 그 진행 정도를 조기에 진단하여 위장관 천공으로 인한 합병증을 예방하는데 그 의미를 가질 수 있을 것으로 보인다.

참고문헌

1. Gardner-Medwin JM, Dolezalova P, Cummins C, Southwood TR. Incidence of Henoch-Schonlein purpura, Kawasaki disease, and rare vasculitides in children of different ethnic origins. *Lancet* 2002;360:1197-202.
2. Pillebout E, Thervet E, Hill G, Alberti C, Vanhille P, Nochy D. Henoch-Schonlein Purpura in adults: outcome and prognostic factors. *J Am Soc Nephrol* 2002;13:1271-8.
3. Nishiyama R, Nakajima N, Ogihara A, Oota S, Kobayashi S, Yokoyama K, et al. Endoscope images of Schonlein-Henoch purpura. *Digestion* 2008;77:236-41.
4. Stancanelli B, Vita A, Vinci M, Magnano A, Purrello F. Bleeding of small bowel in Henoch-Schonlein syndrome: the successful diagnostic role of video capsule endoscopy. *Am J Med* 2006;119:82-4.
5. Lee GW, Cheon YK, Kim HJ, Lee SH, Cho JY, Shim CS. A Case of Henoch-Schonlein Purpura with Small Bowel Hemorrhage Diagnosed by Capsule Endoscopy. *Korean J Gastrointest Endosc* 2004;28:317-20.
6. Choi WH, Kim NH, Jung ES, Yoon SG, Park JS, Bae WK, et al. A case of terminal ileal ulcer of Henoch-Schonlein purpura treated with high dose steroid. *Korean J Gastroenterol* 2007;50:324-7.
7. Chang WL, Yang YH, Lin YT, Chiang BL. Gastrointestinal manifestations in Henoch-Schonlein purpura: a review of 261 patients. *Acta Paediatr* 2004;93:1427-31.
8. Liu K, Kaffes AJ. Review article: the diagnosis and investigation of obscure gastrointestinal bleeding. *Aliment Pharmacol Ther* 2011;34:416-23.
9. Ichikawa R, Hosoe N, Imaeda H, Takabayashi K, Bessho R, Ida Y, et al. Evaluation of small-intestinal abnormalities in adult patients with Henoch-Schonlein purpura using video capsule. *Endoscopy* 2011;43 Suppl 2:E162-3.
10. Tobino K, Shimizu Y, Miura S, Sugawara K, Takeda K, Tomino Y. Severe erosive lesions in the digestive tract of patients with Henoch-Schönlein Purpura (HSP) and its impact on prognosis - presentation of two cases and statistical review of adult-onset Japanese HSP. *Clin Nephrol* 2011;75 Suppl 1:47-55.