

CASE REPORT

자연 정복된 회맹판 장중첩증으로 나타난 말단 회장의 림프종 1예

장혜윤, 이종윤, 김석현, 박민경¹, 이종훈

동아대학교병원 소화기내과, 병리과¹

Distal Ileal Lymphoma Presenting Ileocecal Intussusception with Spontaneous Reduction

Hye Yoon Jang, Jong Yoon Lee, Suk Hyun Kim, Min Gyoung Pak¹ and Jong Hoon Lee

Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Department of Pathology¹, Dong-A University Hospital, Busan, Korea

Intussusception is a rare disease in adults. A demonstrable etiology is found in approximately 85% of all cases, and approximately 40% of them are caused by malignant tumors. A 65-year-old patient visited the outpatient department with mild abdominal pain without other symptoms. The initial laboratory test and simple X-ray showed normal findings. CT revealed intussusception in the ileocecal area. The initial colonoscopic biopsy revealed atypical cells. Follow up colonoscopy showed spontaneous reduction of the intussusception. Diffuse large B-cell lymphoma was suspected in the second colonoscopic biopsy. An elective operation was performed. This case reports a case of a spontaneous reduction of adult intussusception with a brief review of literature. (**Korean J Gastroenterol 2019;74:291-294**)

Key Words: Immunoproliferative small intestinal disease; Intussusception; Colonoscopy

서론

성인에서의 장중첩증은 비교적 드문 질환으로 대부분 원인이 되는 유발점이 존재한다. 증상이 비특이적이며 아급성 및 만성 경과를 보이므로 진단이 어려운 경우가 많다.¹⁻³ 발생 부위와 원인 질환에 따라 다르나 일반적으로 수술적 치료가 행해진다.⁴⁻¹² 성인 장중첩증을 진단할 때 수술 전 내시경적 소견이 함께 보고된 증례들이 있으나^{13,14} 국내에서 보고된 회맹판 장중첩증의 사례들 중에서 수술 전에 내시경 검사로 자발 정복을 확인한 경우는 아직 보고가 없다.¹⁵⁻²⁰ 저자들은 회맹판 장중첩증을 보인 성인에서 수술 전에 시행된 내시경 검사에서 자연 정복을 확인한 사례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

65세 남자가 3주간 지속된 경미한 복통을 주소로 외래로 내원하였다. 음주력 및 흡연력, 특이 병력이나 약물 복용력은 없었다. 계통 문진에서 복통 외 체중 감소, 발열, 피로감, 혈변, 토혈 등 다른 증상은 없었다. 이학적 검사에서 우하복부의 압통을 경하게 호소하였으나 반발 압통은 동반되지 않았고, 기타 이상 소견은 없었다. 흉부 및 복부 방사선 검사에서는 정상 소견을 보였다. 총 혈구 검사에서는 백혈구 6,780/mm³, 혈소판 299,000/mm³, 혈색소 10.9 g/dL, 평균 혈구용적 78 fL로 경미한 소구성 빈혈 소견을 보였다. 간기능 및 신장기능 검사에서는 모두 정상 범위 내 수치를 보였다. 전해질 검사에서는 나트륨 133 mEq/L, 포타슘 3.9 mEq/L, 클로라이드 102 mEq/L로 경미한 저나트륨혈증을 보였다. C-반응 단백질을

Received July 28, 2019. Revised September 4, 2019. Accepted September 8, 2019.

© This is an open access article 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.
Copyright © 2019. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 이종훈, 49201, 부산시 서구 대신공원로 26, 동아대학교병원 소화기내과

Correspondence to: Jong Hoon Lee, Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine, Dong-A University Hospital, 26 Daesingongwon-ro, Seo-gu, Busan 49201, Korea. Tel: +82-51-240-5042, Fax: +82-51-242-5852, E-mail: jh2002@dau.ac.kr, ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-9018-9454>

Financial support: None. Conflict of interest: None.

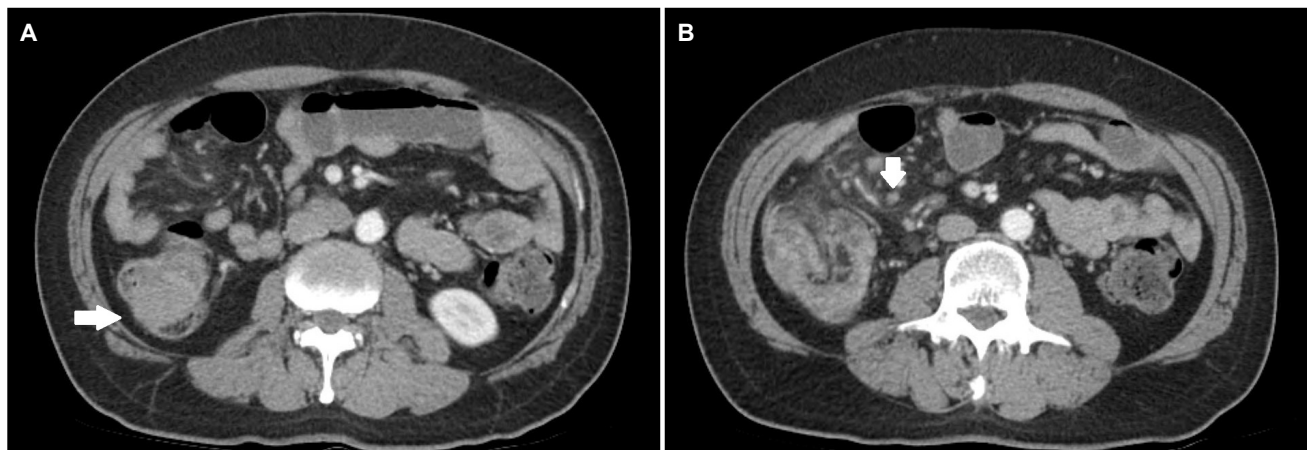


Fig. 1. (A) A mass like lesion with mild contrast enhancement (white arrow) is observed in the cecum. The proximal ileocecal valve shows a crescent shape. (B) Enlarged lymph node (white arrow) is observed adjacent to the ileocecal area.

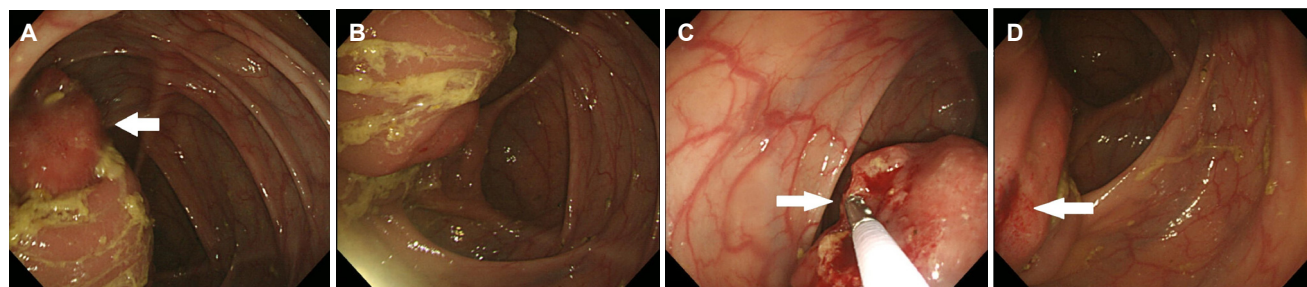


Fig. 2. (A) The normal cecum and the intussuscepted ileocecal valve are observed like a mass. The upper part of the intussuscepted region (white arrow) was firm and showed mucosal erythema. At the lower part, a normal ileal mucosa is observed. (B) Other side view of the intussuscepted lesion. (C, D) Biopsies were done at the marked area (white arrows).

은 1.06 mg/dL로 경한 상승을 보였고, 혈액응고 검사는 정상 소견을 보였다. 진단을 위하여 추가적인 복부 전산화단층촬영 검사를 시행하였고, 검사 결과 회맹판 장중첩증 및 주변부 임파선 종대가 확인되었다(Fig. 1). 환자의 전신 상태가 양호하여 조직학적 진단 및 육안적 확인을 위하여 대장 내시경 검사를 시행하였다.

대장 내시경 검사에서 회맹판 장중첩증이 확인되었고(Fig. 2A, B), 반전된 소장 점막 부위 및 종양으로 의심되는 부위가 관찰되어 각각 조직 검사를 시행하였다(Fig. 2C, D). 검사 이후 환자에게 확진과 치료를 위하여 수술을 받도록 권하였다. 환자는 조직 검사 결과를 확인한 뒤에 수술을 받기를 원하여 대변완화제를 처방받은 후 외래에서 결과를 확인하였다. 조직 검사 결과는 비정형세포로 확인되었다. 환자에게 수술을 다시 권하였으나 환자는 증상이 사라진 상태여서 조직 검사 결과를 확인한 뒤 수술을 받기를 원하였다. 첫 대장 내시경이 시행된 이후 10일 뒤 재 조직 검사를 위한 대장 내시경 검사를 시행하였다.

대장 내시경 검사에서 이전에 보이던 회맹판 장중첩증이

확인되지 않았고 정상 회맹판이 관찰되어 자발적인 정복이 확인되었다(Fig. 3A). 정복된 회맹판을 통하여 말단 회장으로 진입하였고, 회장 내에 2개의 균상 용기형 병변이 관찰되어 조직 검사를 시행하였다(Fig. 3B-D). 조직 검사에서 B세포 기원의 비호즈킨 림프종 소견이 확인되었고, 이후 환자는 일반 외과로 입원하여 정규 수술을 받았다. 수술은 우반결장 절제술로 진행하였고, 회맹판을 중심으로 근위부와 원위부 각각 40 cm의 길이로 절제하였다. 절제 변연부는 음성하였고, 회장 말단의 12.5 cm, 6.5 cm, 3.2 cm에서 각각 6.4×4.2 cm, 4.1×3.9 cm, 3.8×2.6 cm 크기의 종양이 발견되었다. 주변 림프절은 장간막 림프절 14개와 결장 주위 림프절 33개를 제거하였다. 병리조직 검사 및 유세포 분석을 통하여 미만성 B형 대세포 림프종으로 확진되었다(Fig. 4). 주변의 림프절 전이는 결장 주위 림프절 1곳에서 확인되었고, 최종적으로 확진된 병기는 위장관 림프종의 Lugano 병기에 따라 II₁ 단계로 국한성 비호즈킨 림프종이었다. 수술 후 표준항암화학치료(리투시맵, 사이클로포스파마이드, 빈크리스틴, 독소루비신, 프레드니솔론)를 6회 시행하였고, 이후 외래에서 경과 관찰 중에 있다.

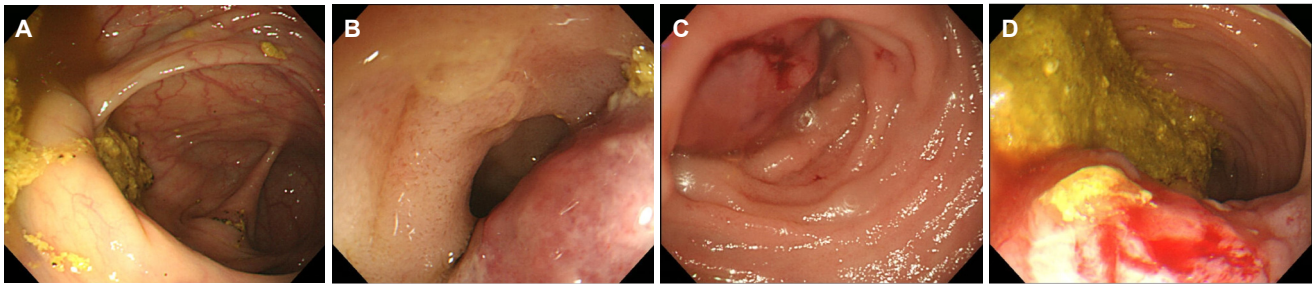


Fig. 3. (A) The normal cecum and the ileocecal valve are observed. (B-D) Two fungating masses were observed (B, C: proximal terminal ileum; D: distal terminal ileum).

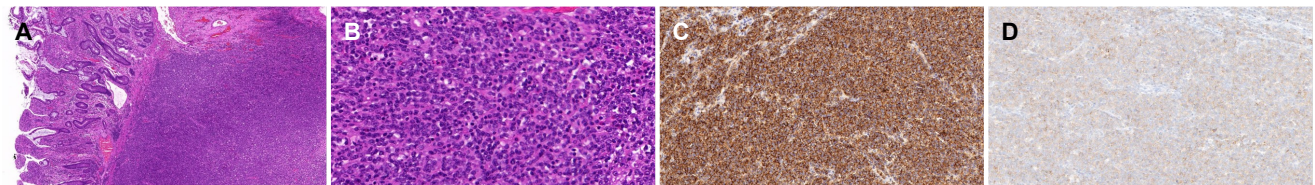


Fig. 4. (A) Micrograph of the ileal mass. The submucosal layer is invaded by atypical cells (H&E, $\times 20$). (B) The nuclei of atypical cells are three times larger than normal lymphocytes and scattered diffusely (H&E, $\times 200$). (C) Tumor cells can be diagnosed as a diffuse large B-cell lymphoma when the findings of (B) demonstrate a strong positive for CD20 immunostaining, a B-cell marker (CD20 immunohistochemical, $\times 200$). (D) Tumor cells are positive for CD10 and correspond to the germinal center B type according to the Hans classification (CD20 immunohistochemical, $\times 20$).

고 찰

장중첩증은 장의 일부가 연속되는 장내강으로 들어가 중첩되는 것이다. 정확한 기전은 밝혀지지 않았으나 장관 벽을 자극하여 나타나는 연동 운동 장애로 발생하는 것으로 생각된다. 장중첩증은 소아와 성인 모두에서 나타날 수 있으나 성인에서 나타나는 경우는 전체 장중첩증의 5% 이하로 드물게 나타난다. 또한 이는 성인에서 나타나는 장폐색의 원인 질환 중에서 1%로 매우 드문 질환이다.¹⁻³

성인의 장중첩증에서는 대부분 선도점이 존재한다. 최근의 메타 연구에 따르면 선도점의 원인으로 악성 종양이 32.9%, 양성 종양이 37.4%, 원인 불명이 15.1%를 차지한다고 보고되었다.³ 장중첩증이 발생하는 부위는 소장이 가장 흔하며 전체의 절반 가량을 차지하고, 그 외 회맹판, 대장의 순서로 흔한 것으로 보고되었다. 장중첩증을 나타내는 흔한 원인 질환은 발생 부위에 따라 다르다. 소장에서는 전이성 암, 회맹판 및 결장에서는 선암이 가장 흔한 것으로 보고되었다.^{2,3,5}

성인 장중첩증의 발현 증상은 소아와 비교하여 아급성 및 만성적 경과를 보이며 비교적 다양하게 나타날 수 있다.⁷ 복통이 가장 흔하며 그 외 구토, 변비, 복부 종괴, 설사, 혈변 등 다양한 증상이 나타날 수 있다. 장중첩증은 증상이 비특이적이고 비교적 드문 질환이므로 대부분의 경우 초기 증상만으로 진단이 어려운 경우가 많다.^{2,3,4,6}

진단적 접근은 단순 방사선 촬영 및 바륨 관장, 복부 초음

파, 내시경, 전산화단층촬영 등 다양한 방법이 있다.^{2,3,5,7} 일반적으로 전산화단층촬영이 초기 진단에 가장 큰 역할을 하는 것으로 알려져 있다. 이는 비침습적이며 높은 정확도를 보여 다른 영상학적 진단에 앞서 추천된다. 대장 내시경은 병변의 위치에 따른 접근의 제한이 있고 통증, 천공 등의 위험으로 자주 시행하지 않는 검사이나 확진이 가능하며 조직 검사가 가능하다는 장점이 있어, 접근 가능하며 전신 상태가 양호한 경우 시행하는 것이 추천된다.⁷

성인에서의 장중첩증의 치료에 있어 표준화된 권고안은 없지만 특별한 금기가 없다면 대부분 수술을 시행할 것을 권하고 있다. 이는 원인 질환의 대부분이 종양과 연관되어 있기 때문이다. 보존적 치료만으로 완치되는 경우는 전체의 5% 미만으로 매우 드물다.¹⁻⁶

악성 림프종은 호즈킨 림프종과 비호즈킨 림프종으로 나뉘며, 림프절 외의 발생은 대부분 비호즈킨 림프종이다. 림프절 외 발현 장소는 위장관이 가장 흔하며, 발현 빈도는 위, 소장, 대장 순으로 보고되었다. 특히 소장의 림프종은 전체 위장관 악성 종양의 4%, 소장 내 악성 종양의 10-20% 정도로 드물게 나타난다.⁹

회맹판 장중첩증을 유발하는 비호즈킨 림프종의 경우 드문 질환으로, 국내에서 보고된 개별 증례는 대한내과학회지에서 2예, 대한외과학회지에서 3예, 대한소화기내시경학회지에서 6예, 대한중양외과학회지에서 1예 등 총 12건의 증례가 보고된 바 있다. 이 중 1예는 T세포 림프종이었고 1예는 버킷 림프종이

었으며, 나머지 예는 모두 미만성 B형 대세포 림프종이었다. 위의 증례들은 모두 수술적 절제를 받았으며 절제 이후 항암 치료를 완료하였다. 이 중 내시경적으로 조직학적 진단이 이루어진 예는 1예에 불과하였고, 대부분은 조기에 수술이 행해진 뒤 수술 검체로 확진되었다.¹³⁻²⁰

본 증례는 악성 림프종을 동반한 장중첩증 환자가 대장 내시경에서 자발적인 정복을 보인 드문 사례이다. 성인의 장중첩증은 대부분 수술적 치료가 필요하며, 특히 악성 종양이 동반된 경우 자발 정복을 관찰한 사례는 해외에서 드물게 보고되어 있으나 대부분 양성 질환이었으며,¹⁰⁻¹² 대장 내시경으로 확인된 예 역시 드물었다.¹² 국내에서는 아직 보고된 사례가 없다.

성인 장중첩증은 조기에 수술이 행해지는 경우가 많으므로 보존적 치료를 시행하였을 경우에서 자연 경과를 잘 알려져 있지 않다. 특히 악성 종양과 동반된 일시적인 장중첩증은 희귀한 사례이다. 저자들은 경미한 복통으로 내원하여 시행한 내시경 검사상 장중첩증을 확인한 뒤 재 조직 검사를 위한 대장 내시경에서 자연 정복된 장중첩증을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Nestorović M, Stanojević G, Brzacki V, et al. Ileocolic intussusception as a presenting sign of primary lymphoma of the colon. *Srp Arh Celok Lek* 2011;139:673-676.
2. Azar T, Berger DL. Adult intussusception. *Ann Surg* 1997;226:134-138.
3. Hong KD, Kim J, Ji W, Wexner SD. Adult intussusception: a systematic review and meta-analysis. *Tech Coloproctol* 2019;23:315-324.
4. Onkendi EO, Grotz TE, Murray JA, Donohue JH. Adult intussusception in the last 25 years of modern imaging: is surgery still indicated? *J Gastrointest Surg* 2011;15:1699-1705.
5. Gupta RK, Agrawal CS, Yadav R, Bajracharya A, Sah PL. Intussusception in adults: Institutional review. *Int J Surg* 2011;9:91-95.
6. Cochran AA, Higgins GL 3rd, Strout TD. Intussusception in traditional pediatric, nontraditional pediatric, and adult patients. *Am J Emerg Med* 2011;29:523-527.
7. Valentini V, Buquicchio GL, Galluzzo M, et al. Intussusception in adults: the role of MDCT in the identification of the site and cause of obstruction. *Gastroenterol Res Pract* 2016;2016:5623718.
8. Karakus SC, Ozokutan BH, Ceylan H. Diseases mimicking intussusception: diagnostic dilemma. *Pediatr Int* 2014;56:768-771.
9. Aledavood A, Nasiri MR, Memar B, et al. Primary gastrointestinal lymphoma. *J Res Med Sci* 2012;17:487-490.
10. Vobořil R, Fanta J, Bačkovský P, Ehrenberger D, Vobořilová J. Transient and non-transient intussusceptions of the large bowel in adults: two case reports. *Acta Medica (Hradec Kralove)* 2015;58:66-68.
11. Lai J, Ramai D, Murphy T, Kasher F. Transient adult jejunojejunal Intussusception: a case of conservative management vs. surgery. *Gastroenterology Res* 2017;10:369-371.
12. Khan Z, Darr U, Renno A, Alkully T, Rafiq E, Sodeman T. Transient descending colocolonic intussusception due to a large fecaloma in an adult. *ACG Case Rep J* 2017;4:e94.
13. Kim JH, Kim YB, Kwak ST, Kim HY, Park CK, Yoo JY. Two cases of malignant lymphomas in the terminal ileum causing intussusception: diagnosis and reduction of intussusception by colonoscopy. *Korean J Gastrointest Endosc* 1999;19:650-655.
14. Park JH, Kim HW, Part WI, et al. A Case of ileocecal Burkitt's lymphoma with intussusception in an adult. *Korean J Gastrointest Endosc* 2004;29:94-98.
15. Jung H, Rhim HY, Yoo KD, et al. Primary malignant lymphoma of the small intestine causing adult intussusception as an initial symptom. *Korean J Gastrointest Endosc* 1994;14:100-104.
16. Park DK, Ahn IK. Primary lymphoma of the ileum manifested as ileocolic intussusception. *J Korean Surg Soc* 1996;50:137-143.
17. Nam S, Kang J, Park H, Lee KY, Sohn SK. Adult ileocecal intussusception caused by malignant lymphoma. *Korean J Clin Oncol* 2014;10:46-48.
18. Lee JJ, Sim MS, Kang JK. Primary lymphoma of the lieum manifested as ileocecal intussusception: a case report. *J Korean Surg Soc* 1994;47:892.
19. Chung GO, Kang DB, Jo HJ, Oh JT. Primary malignant lymphoma of the terminal ileum causing intussusception in adults. *J Korean Surg Soc* 2007;72:244-249.
20. Park IH, Roh JH, Yu JH, et al. Two cases of cecal lymphoma causing intussusception. *Korean J Med* 2008;74:315-320.