

반복적으로 발생한 일과성 소장형 장중첩증 1예

경희대학교 의과대학 부속병원 소아과

문윤희 · 윤민정 · 김수연 · 나영호

A Case of Recurrent Transient Small Bowel Intussusception

Yun-Hee Mun, M.D., Min-Jung Yun, M.D., Su-Youn Kim, M.D. and Yeong-Ho Rha, M.D.

Department of Pediatrics, College of Medicine, Kyung Hee University, Seoul, Korea

Isolated small bowel intussusception accounts for 10% of all pediatric intussusception. It is more common in children older than 2 years of age. Presentation usually is with vomiting and abdominal pain. Currant jelly stool and palpable mass are less frequent than typical intussusception. There are few reported cases of children with transient small bowel intussusception. We describe 3-year-old boy presented with intermittent cyclic crampy abdominal pain for 6 months was diagnosed as having recurrent transient small bowel intussusception by abdominal ultrasonography and small bowel series. (*Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2006; 9: 70~74)

Key Words: Transient small bowel intussusception, Spontaneous reduction, Chronic recurrent intussusception

서 론

장중첩증은 2세 이하의 환아에서 장폐색을 일으키는 가장 흔한 원인이며 대부분의 증례에서 심한 복통과 혈변, 촉진되는 종괴와 같은 전형적 세 가지 증후를 통해 진단하게 된다. 그러나 더 나이트 소아에서는 복통, 구토, 혈변 등의 증상이 있어도 장중첩증을 의심하여 신속히 대처하지 않고 진단과 치료

가 지체되거나 부적절한 경우가 있다¹⁾. 소장형 장중첩증은 소아 장중첩증의 약 10%에서 발생하며 2세 이상에서 더 흔하다. 임상증상은 흔히 구토와 복통이며 전형적 장중첩증의 증상인 주기적 복통, 보챌, 혈변, 촉진되는 종괴 등을 보이는 경우가 드물다²⁾.

지금까지 소아에서의 일과성 소장형 장중첩증의 증례 보고는 흔하지 않았으나 최근 복부 초음파 기기의 발달로 국내에서도 자연 정복된 소장형 장중첩증의 보고가 증가하고 있고^{3,4)} 해외에서 기저질환 없이 발생한 예와 글루텐 유발성 장증(celiac disease), 신증후군과 동반된 몇 예가 보고⁵⁻⁷⁾되어 있다. 그러나 일과성 소장형 장중첩증이 재발된 예는 보고가 드물어 전 세계적으로 글루텐 유발성 장증과 동반한 몇 예만이 보고되어 있다⁸⁾.

접수 : 2006년 1월 31일, 승인 : 2006년 2월 28일
책임저자 : 나영호, 130-702, 서울특별시 동대문구 회기동 1
경희대학교 의과대학 부속병원 소아과
Tel: 02-958-8306, Fax: 02-967-1382
E-mail: yhrha@khu.ac.kr

저자들은 6개월간의 간헐적, 주기적, 경련성의 복통을 주소로 내원한 3세 남아에서 복부 초음파 결과 소장의 장중첩증이 발견되었고 검사도중 자연 정복되었으며, 3일 후 시행한 소장 조영 촬영에서도 일시적 소장형 장중첩증이 재발된 증례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 아: 홍○○, 3세, 남아

주 소: 6개월간 반복된 주기적 복통

현병력: 평소 건강하게 지내던 환아로 6개월 전부터 주당 3~4회의 빈도로 간헐적인 배꼽 주변의 복통을 호소하였다. 복통은 30여 분간 지속된 후 호전되어 2~3시간동안 증세가 없다가 다시 반복되는 주기성을 보였다. 응급실에 두 차례 내원하여 복부 초음파를 시행하였으나 특이 소견이 없었고, 단순 복부 촬영에서 분변 매복으로 글리세린 관장 후 단단한 대변을 배출한 후에 증세가 호전되어 귀가하였다. 입원 이틀 전 외래를 방문하여 만성적 반복적 복통에 대하여 일반 혈액 검사, 생화학 검사, 복부 초음파 검사를 예약하였고 평소의 변비에 대하여 처방 받고 귀가하였다. 복부 초음파 예정일에 환아는 세 차례의 구토와 심한 복통을 호소하였고 복부 초음파상 소장의 일과성 장중첩증이 발견되어 경희대학교 부속병원 소아과에 입원하였다.

과거력 및 가족력: 평소 3일에 한번 단단한 변을 힘들게 보는 변비 소견 외에 특이 사항은 없었다.

진찰 소견: 입원 당시 활력 징후는 맥박수 96회/분, 호흡수 33회/분, 체온 36.4°C였으며, 의식은 명료하였다. 복부 촉진 상 압통점이나 촉진되는 종괴는 없이 부드러웠고 복부 팽만은 없었으나 장음이 항진되어 있었다.

검사 소견: 입원 당시 말초 혈액 검사에서 총 백혈구수 7,120/mm³, 혈색소 12.7 g/dL, 적혈구 용적 37.1%, 혈소판 549,000/mm³였다. 전해질 검사에서 Na 145 mEq/L, K 4.8 mEq/L, Cl 110 mEq/L였고, AST/ALT는 각각 30/11 IU/L였다.

방사선 소견: 단순 복부 촬영 소견에서 반사성 장

내 공기 양상을 보이고 있었다. 복부 초음파 검사에서 장간막의 림프절이 관찰되었으며 가장 큰 림프절의 크기는 7 mm였고 그 주위에 소량의 복수가 있었다. 도넛 소견(doughnut sign)의 소장의 장중첩이 관찰되었으나 검사 중 자연 정복되었다(Fig. 1). 장중첩의 원인이 될 만한 기질적 병소는 발견되지 않았다.

3일 후 시행한 바륨 소장 조영술에서도 근위부 공장에서 전체 직경이 21 mm이고 길이가 26 mm인 짧은 분절(short segment)의 코일스프링 모양(coiled spring appearance)이 관찰되다가 검사 도중 자연 정복되었고 장중첩의 선두는 발견되지 않았다(Fig. 2). 맥켈 스캔 검사에서 특이 사항은 없었다.

치료와 경과: 환아는 초음파 도중 소장 장중첩이 저절로 소실된 이후 복통이 호전되었고 이후 혈변이 아닌 정상변의 배출이 있어 보존적 치료를 하였다. 기질적 병소의 감별을 위해 바륨 소장 조영술을 시행하였으나 특별한 기질적 병소는 발견되지 않았고, 일과적 소장 장중첩이 관찰되었으나 환아는 복통을 호소하지 않았다. 이후 보존적 치료에 증세가 호전되어 입원 5일째 퇴원하여 4개월 후인 현재까지 특별한 증상 없이 지내고 있다.

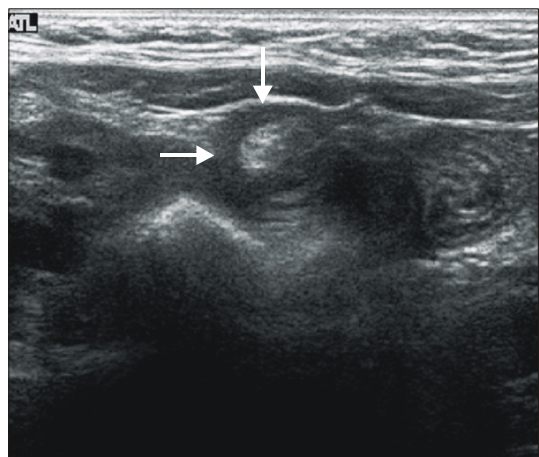


Fig. 1. Abdominal ultrasonography shows a doughnut sign on transverse scan indicating intussusception. The small bowel intussusception spontaneously reduced during US examination and his abdominal pain subsided.

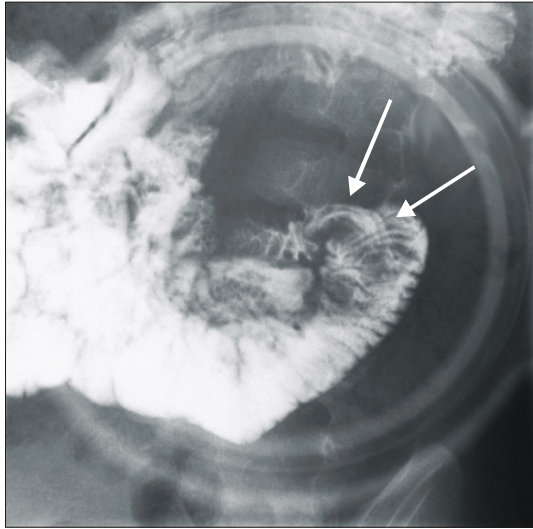


Fig. 2. Small bowel series shows a coiled spring appearance at proximal jejunum indicating short segment small bowel intussusception. The length of lesion is 2.6 cm. This lesion spontaneously reduced during examination.

고 찰

장중첩증에 사용되는 용어는 일치되어 있지 않으나 Rafinesque⁹⁾의 분류가 가장 널리 받아들여지고 있으며 다음과 같은 4가지 군 - 초급성군: 발병 2일 내에 사망, 급성군: 일주일 내에 사망, 아급성군: 발병 후 일주일에서 14일까지 생존, 만성군: 14일 이상 생존 - 이 있다. 재발성 장중첩증과 만성 장중첩증은 혼재되어 사용되고 있는데, West 등¹⁰⁾은 재발성 장중첩증은 수압 정복 후에 즉시 재발한 경우로 한정하여 사용해야 하며 그 이외의 경우에는 만성 장중첩증이라는 용어가 사용되어야 한다고 제안하였다. 본 증례의 환아는 일과성의 장중첩증이 반복되어 재발성 일과성 장중첩증으로 진단하였고 진단 이전에 6개월간 지속된 같은 증상에 대하여 만성적으로 일과성 장중첩증이 반복되었을 가능성이 있다고 추측된다.

장중첩증의 2~12%에서는 분명한 선두(leading point)가 있거나 기저 질환에 이차적으로 발병한다.

이차성 장중첩증은 신생아를 제외하고 연령이 증가하거나 재발성일수록 비율이 증가한다¹¹⁾. 맥켈 계실(Meckel's diverticulum)과 중복낭(duplication cyst)은 소아 전체 시기의 원인이며, 장폴립(intestinal polyp)과 림프종은 더 나이드 소아에서 장중첩의 원인이 된다¹²⁾. 본 증례에서는 선두나 기저 질환은 발견되지 않았다.

장중첩의 73%는 3개월에서 9개월 사이의 유아에서 발생하고, 88%는 생후 1년 이하의 유아에서 발생하며¹³⁾, 만성 장중첩증의 발생률은 1세 이하의 환아에서는 약 3%, 그 이상의 환아에서는 약 10%로 알려져 있다¹⁰⁾.

만성 장중첩증은 급성으로 발병한 경우와는 임상 양상의 차이를 보이게 된다. 일부의 저자들은 임상 양상이나 증상만으로는 만성 장중첩증을 예측하기 힘들다고 기술하고 있고, 다른 저자들은 장중첩증의 진단에 특이적인 직장을 통한 혈변이나 점액의 배출이 없는 증례를 보고하고 있다¹⁴⁾. 만성 장중첩증을 의심할만한 유일하게 특이적인 임상소견은 갑자기 시작되는 심한 복통이 반복되는 병력이다. 일부의 증례 보고에서는 쇠약과 과도한 체중 감소가 있었고, 이러한 임상소견은 다른 만성 장중첩증의 증례에서도 일관되게 나타난다¹⁵⁾. 만성 장중첩증의 경우에도 많은 예에서 두 번째 시도할 때 수압 정복이 되었으나, 바륨 관장 시 중첩된 장의 움직임이 없거나 고체온을 보이는 경우, 심박동이 증가한 경우, 증상이 오래된 경우에는 정복에 실패하였으며 Sandler 등은 비수술적 정복이 두 번 실패한 경우 조기 수술이 고려되어야 한다고 하였다¹⁶⁾.

소장에서 발생하는 장중첩증은 발생 연령이 평균 4세로 대장에서의 2세 미만보다 더 높고, 주기성 보챔, 혈변, 복부 종괴와 같은 특징적 증상이 잘 나타나지 않으므로 진단에 유의하여야 한다³⁾. 본 증례에서는 만성 주기성의 복통과 구토가 있었으며, 혈변, 보챔, 복부 종괴, 체중 감소 등은 보이지 않았다.

일과성 소장형 장중첩증의 경우 전형적 장중첩증보다 급성 장염, 장간막 림프절염, 대장 장중첩증, Henoch-Schonlein 자반증, 개복수술 후와 같은 동반 질환이 더 흔한 것으로 보고되었다. 이러한 병변은

소장벽의 출혈, 감염으로 인한 소장벽 일부 층의 부종, 위장운동장애, 이전의 수술이나 괴사로 인한 반흔, 장유착이 선두로 작용하는 등의 기전을 통해 소장 장중첩의 호발요인이 된다¹⁷⁾.

Kim¹⁸⁾은 일과성 소장 장중첩증의 특징적인 초음파 소견으로 전체 직경 2.5 cm 미만의 작은 크기, 짧은 분절 함입(3 cm 미만), 함입부와 중첩부의 장관 연동 운동이 있을 것, 장중첩의 선두가 없을 것을 제시하였다. 본 증례에서도 초음파 검사와 소장 조영술에서 짧은 분절(2.6 cm), 작은 크기(2.1 cm)의 도넛 소견(doughnut sign)을 보이고 있었고 장중첩의 선두는 발견되지 않았다. 병변은 검사 도중 자연 정복되었으며 이와 함께 복통 증세가 호전되어 증상과 장중첩의 관련성을 시사하였다. 그러나 이후의 소장 조영술 당시에는 증상 유발 없는 일과성 장중첩이 발견되었고 이 때의 장중첩은 보다 작은 분절에서 일어났음을 추측해 볼 수 있다.

일반적으로 소장 장중첩증은 수압이나, 공기 정복술이 효과가 없어 대장 장중첩증과 합병된 경우나 회맹장 판막 근처의 회장-회장형과 같은 일부의 경우를 제외하고는 바륨 관장, 공기정복술이 진단과 치료로서 추천되지 않는다¹⁸⁾. 일과성 장중첩증의 전형적 초음파 소견을 보일 경우 즉시 수술을 하기 보다는 주의 깊은 관찰과 재검사가 필요하다. 이러한 환자치료의 선택은 환자의 임상증세에 근거해야 하며 만약 증상이 지속되고 장폐색이 있는 경우에는 수술이 권장된다¹⁹⁾. 본 증례의 환아는 자연 정복 후 증세가 호전되었으며, 이후의 보존적 치료에도 복통과 장폐색의 증세가 없어 퇴원하였다.

일과성 소장형 장중첩증은 재발이 드문 것으로 알려져 있고 허 등³⁾의 12예와 이 등⁴⁾의 11예의 보고에서도 재발된 예는 없었다. González 등⁸⁾은 글루텐 유발성 장증 환아에서 증상 없이 일시적으로 발생한 소장형 장중첩증이 여러 차례 재발된 증례를 보고하면서 글루텐 유발성 장증 환아의 7~20%에서 바륨 조영술을 시행하였을 때 이러한 소견이 발견되며, 증상이 없이 반복되는 일시적인 소장 장중첩증은 글루텐 유발성 장증의 특이적 방사선 소견으로 간주된다고 기술하였다. 본 증례의 환아는 성장

장애, 설사, 보챔과 같은 글루텐 유발성 장증을 의심할만한 증세가 없었으므로 항체 검사를 시행하지 않았으나 그러한 증세가 동반되는 재발성 일과성 소장 장중첩증 환아에서는 혈청 IgA, IgG antigliadin 항체, 혈청 IgA antiendomysium 항체 검사가 필요하다.

Mapagu 등³⁾은 5세 여아에서 5일간의 반복적이고 극심한 복통과 구토를 동반하였고 복부 초음파에서 장간막 림프절염과 함께 초음파 검사 도중 저절로 호전된 소장 장중첩증을 보고하였다. 환아는 10일간 입원하여 보존적 치료에 증상이 호전되어 퇴원하였으나 퇴원 후에도 6주간 둔한 중심성의 복통을 호소하였다. 본 증례의 환아도 장간막 림프절염과 동반하여 6개월간의 만성적이고 반복적인 복통을 보이며 이는 자연 정복되는 소장 장중첩증이 한 달 이상 만성적으로 재발했을 가능성을 추측케 한다. 따라서 소아의 만성적 복통의 흔하지 않은 원인으로 반복되는 일시적 소장 장중첩을 감별해야 할 것으로 생각된다.

요 약

저자들은 6개월간의 만성적 반복적 복통을 주 소로 한 환아에서 복부 초음파 검사와 소장 조영술로 반복된 일과성 소장형 장중첩을 발견하였고 보존적 치료로 호전된 증례를 경험하여 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Yadav KK, Patel RV, Mlitra SK, Malik AK. Chronic secondary caeco-colic intussusception in a boy associated with primary malignant lymphoma of caecum (a case report). J Postgrad Med 1986;32:94-6.
- 2) Stringer MD, Pablot SM, Brereton RJ. Paediatric intussusception. Br J Surg 1992;79:867-76.
- 3) 허남진, 류민혁, 이동진, 권중혁. 일과성 소장형 장중첩증의 임상적 고찰. 대한소아소화기영양학회지 2005; 8:160-8.
- 4) 이현숙, 정주영, 구자욱, 김상우, 김성희. 소아 장중첩증의 임상 특성 비교: 소장형과 대장형의 비교. 대한소화기학회지 2006;47:37-43.

- 5) Mapagu C, Lam A, Martin HCO, Fitzgerald DA. Intermittent intussusception. *J Paediatr Child Health* 2003;39:147-8.
- 6) Mushtaq N, Marven S, Walker J, Puntis JWL, Rudolf M, Stringer MD. Small bowel intussusception in celiac disease. *J Pediatr Surg* 1999;34:1833-5.
- 7) Asai K, Tanaka S, Tanaka N, Tsumura K, Kato F, Kikuchi K. Intussusception of the small bowel associated with nephrotic syndrome. *Pediatr Nephrol* 2005;20:1818-20.
- 8) Gonzalez JA, Gonzalez JB, Crespo MJ, Sancho CI. Acute gallbladder distension and recurrent small bowel intussusception in a child with celiac disease. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1998;27:444-5.
- 9) Rafinesque FG. Etude sur les invaginations intestinales chroniques. Paris: Baillière et Fils, 1878. Cited from reference 10).
- 10) West NJ, Daniels IR, Carr ND. Lessons to be learned: a case study approach. Chronic intussusception in childhood. *J R Soc Health* 2003;123:181-4.
- 11) Ong NT, Beasley SW. The leadpoint in intussusception. *J Pediatr Surg* 1990;25:640-3.
- 12) Puri P, Guiney EJ. Small bowel tumours causing intussusception in childhood. *Br J Surg* 1985;72:493-4.
- 13) Kim YS, Rhu JH. Intussusception in infancy and childhood. Analysis of 385 cases. *Int Surg* 1989;74:114-8.
- 14) Garvje J, Kemp F. The diagnosis of intussusception in children with an account of three cases. *Arch Dis Child* 1945;20:73-7. Cited from reference 10).
- 15) Reijnen JA, Festen C, Joosten HJ, Van Wieringen PM. Atypical characteristics of a group of children with intussusception. *Acta Paediatr Scand* 1990;79:675-9.
- 16) Sandler AD, Ein SH, Connolly B, Daneman A, Filler RM. Unsuccessful air-enema reduction of intussusception: is a second attempt worthwhile? *Pediatr Surg Int* 1999;15:214-6.
- 17) Kornecki A, Daneman A, Navarro O, Connolly B, Manson D, Alton DJ. Spontaneous reduction of intussusception: clinical spectrum, management and outcome. *Pediatr Radiol* 2000;30:58-63.
- 18) Kim JH. US features of transient Small Bowel intussusception in Pediatric Patients. *Korean J Radiol* 2004;5:178-84.
- 19) Merine D, Fishman EK, Jones B, Siegelman SS. Enterointestinal intussusception: CT findings in nine patients. *Am J Roentgenol* 1987;148:1129-32.