

미숙아에서 발생한 유문협착증 2례

인제대학교 의과대학 상계백병원 소아과학교실
¹일반외과학교실, ²진단방사선과학교실

박중채 · 김정년 · 장철호 · 최명재
김홍용¹ · 김정숙² · 정철영

Pyloric Stenosis in Premature Infants

-Report of two cases-

Joong Chae Park, M.D., Jeong Nyun Kim, M.D., Cheol Ho Chang, M.D.
Myung Jae Chey, M.D., Hong Young Kim, M.D.¹, Jeong Suk Kim, M.D.²,
and Churl Young Chung, M.D.

Department of Pediatrics, ¹General Surgery and ²Diagnostic Radiology
Inje University College of Medicine, Sanggye Paik Hospital, Seoul, Korea

The incidence of Hypertrophic pyloric stenosis (HPS) in premature infants is rare, the presentation is not typical, and the diagnosis delayed due to uncertain diagnostic criteria in abdominal ultrasonography (US). We report two premature infants with HPS diagnosed by US and upper gastrointestinal (UGI) contrast study. Patient 1. A premature female infant (birth weight 1950 gm at 34 week's gestation) with the onset of intermittent vomiting at 9 days of age was evaluated. US was normal at 13 days of life, however, abnormal at 41 days of life (pyloric muscle length 16.5 mm). Patient 2. A premature male infant (birth weight 1470 gm at 29 week's gestation) with the onset of intermittent vomiting at 10 days of age was evaluated. US showed pylorospasm at 11 days of life, however, findings compatible with HPS at 57 days of life (pyloric muscle thickness 11 mm). UGI contrast study at 48 days of life showed similar findings in both cases. Both patients had undergone pyloromyotomy. In conclusion, the diagnosis of HPS in premature infants requires careful follow-up by US and UGI contrast study. (**J Korean Pediatr Gastroenterol Nutr 1998; 1: 120~124**)

Key Words: Hypertrophic pyloric stenosis, Premature infants, Ultrasonography, Upper gastrointestinal contrast study

접수 : 1998년 8월 7일, 승인 : 1998년 9월 8일

책임저자 : 김정년, 139-707, 서울시 노원구 상계 7동 761-1, 상계백병원 소아과, Tel: 02) 950-1625, Fax: 02) 951-1246

*본 연구는 제 47차 대한 소아과학회 추계학술대회에서 포스터 발표되었음.

서 론

비후성 유문 협착증은 신생아기부터 위 유문근의 비후가 일어나 유문강이 길어지고 좁아져서 위 내용물의 구토를 유발하는 질환이다. 정상 신생아에서 유문 협착증의 증상, 진단 및 치료법은 잘 알려져 있다. 그러나 미숙아에서 유문협착증은 외국 문헌에서도 드물게 보고되고 있는 질환으로, 증상이 비전형적이고 복부초음파 검사상의 진단 기준이 모호하여 진단 시기가 지연되기 쉽다. 이에 저자들은 미숙아에서 발생한 유문 협착증 2례를 경험하여 보고하고자 한다.

증 례

증 례 1.

환 아: 양○○ 아기

재태주령 34주, 출생체중 1,950 그램으로 제왕절

개 분만된 여자 환아이다. 산모는 21세의 초산부로 임신중독증이 있었으며 다른 질병의 기왕력은 없었고, 가족력상 특이 소견 없었다. Apgar 점수는 1분 6점, 5분 8점이었다. 출생 직후 신생아 호흡곤란 증후군은 없었고, 생후 4일 심초음파상 동맥관 개존증으로 진단되어 indomethacin 투여 받았으며, 생후 5일부터 gavage 튜브를 통한 장관 영양 시작하였다. 생후 9일부터 비분출성의(non-projectile) 간헐적 구토 및 복부팽만 소견으로 괴사성장염이 의심되어 금식 및 광범위 항생제를 투여하였다. 이때 단순 복부 방사선 소견상 괴사성장염에 합당한 소견은 관찰되지 않았고 패혈증의 증상 및 증후는 없었다. 생후 13일째 시행한 복부 초음파 검사는 정상 소견을 보였다. 이 후에도 계속 장관 영양을 재시도 하였으나 간헐적인 구토는 지속되었다. 생후 33일에도 간헐적인 구토 지속되어 시행한 상부 위장관 조영술상 유문부가 협착된 double track sign으로 유문협착증에 합당한 소견을 보였다(Fig. 1). 이 때 시행한 전해질 검사는 Na 139 mEq/L, K 5.2 mEq/L, Cl 108 mEq/L 였다. 생후 41일 복부 초음파 검사상 유문부의 두께는 3.8 mm, 길이는 16.5 mm로 유문 협착증에 합당한 소견을 보였다(Fig. 2). 생후 51일 유문근 절개술을 시행하였고 수술 후 경구 영양 잘되고 증상 호전되어 입원 62일째 퇴원하였다.

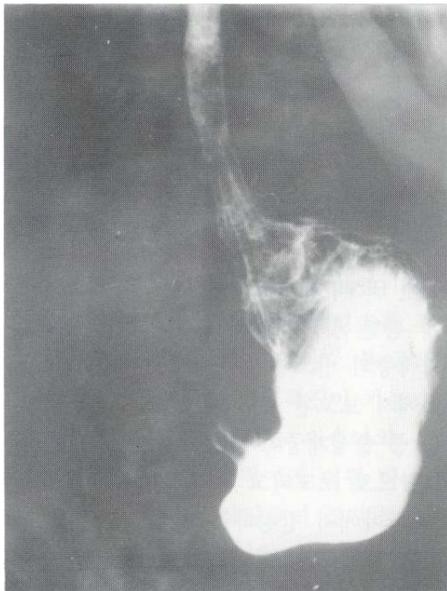


Fig. 1. Upper gastrointestinal contrast study of patient 1. Note narrowed channel, so called "double track sign".



Fig. 2. Abdominal ultrasonography of patient 1. Note irregular wall thickening of pyloric muscle.

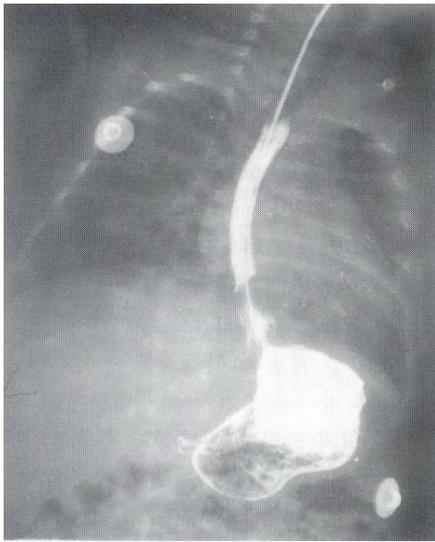


Fig. 3. Upper gastrointestinal contrast study of patient 2. Note elongated pyloric channel bulging out of the pyloric muscle.

증례 2.

환아: 정○○ 아기

재태주령 29주, 출생체중 1,470 그램으로 31세의 정상 초산부로부터 제왕절개 분만된 남자 환아이다. 산모는 다른 질병의 기왕력은 없었고, 가족력상 특이 소견 없었다. Apgar 점수는 1분 3점, 5분 7점이었다. 출생후 호흡곤란 증후군으로 인공폐표면활성제를 투여받았다. 지속적인 복부팽만과 단순 복부 방사선 소견상 피사성 장염이 의심되어 오랫동안 금식하였고, 수차례 장관 영양 시도하였으나 실패하였다. 생후 11일째 시행한 복부초음파상 유문부의 두께와 길이는 정상소견이었고, 상부 위장관 조영술상 short beak-like appearance로 유문부 경련에 합당한 소견 보였다. 복부 초음파 검사는 1주마다 추적 관찰하였으나 유문 협착증에 합당한 소견은 없었다. 생후 48일 상부 위장관 조영술상 유문부가 1 cm 이상 길어져 있고 pinpoint narrowing 소견이 있어 유문 협착증에 합당한 소견 보였다(Fig. 3). 이 때 시행한 전해질 검사는 Na 145 mEq/L, K 4.4 mEq/L, Cl 111 mEq/L였다. 생후



Fig. 4. Abdominal ultrasonography of patient 2. Note thickened and elongated pyloric channel.

57일째 시행한 복부초음파 검사에서 두께는 11 mm, 길이 14 mm로 유문 협착증에 합당한 소견을 보였다(Fig. 4). 생후 61일째 유문근 절개술을 시행하였다. 수술 직후에도 간헐적 구토는 지속되었으나 수술후 80일째부터 구토가 소실되기 시작하여 생후 96일째는 증상이 더욱 호전되어 퇴원하였다.

고찰

1907년 Bloch¹⁾의 문헌에서 미숙아에서의 유문협착증에 관한 첫 기술이 나타난 이래 미숙아에서 유문협착증의 빈도는 3% 정도로 보고되고 있다²⁾. 쌍생아에서 보고된 증례들도 있었고^{3,4)}, 보고된 미숙아들 중 출생체중이 체중이 가장 작았던 경우는 879 그램으로 보고되고 있다⁵⁾. 미숙아의 유문협착증은 만삭아에서 발병하는 경우와는 몇가지 다른 특징이 있는 것으로 알려지고 있다. 몇 개의 문헌을 종합하여 보면 만삭아의 유문협착증에서 구토의 발병시기는 평균 3주경으로 알려지고 있으나 미숙아에서는 그보다 약간 늦은 5주경으로 나타나

고 있다. 미숙아에서는 과도한 식욕이 관찰되지 않고, 과장된 위장의 연동운동이 관찰되지 않으며 만삭아에서의 특징인 분출성 구토(projectile vomiting)가 드물고 경유문부 영양(transpyloric feeding)을 하는 경우에 흔히 발생하는 것으로 알려지고 있다^{2,5-8)}.

구토의 발병시기가 늦은 것은 미숙아의 재태주령이 각기 다르기 때문으로 이해될 수 있으나 본 증례들에서는 문헌에 기술된 증례들과는 달리 구토의 시작시기가 더 빨랐다. 그러나 미숙아에서 구토는 수유 곤란이 있거나 피사성 장염이 있을 때 나타날 수 있는 증상이므로 본 증례에서 유문협착증의 진단을 어렵게 만든 요인으로 작용하였던 것 같다. 그러나 과도한 식욕, 분출성 구토 등의 증상은 관찰되지 않았고 경유문부 영양을 시행한 증례는 없었다.

만삭아에서 유문협착증의 진단시에는 대개 1차적으로 초음파 검사를 가장 널리 이용하고 있다⁹⁾. 대부분의 경우 진단 기준이 되는 유문부의 두께는 3~4 mm, 길이는 12~15 mm 정도를 기준으로 설정하고 있다. 그러나 미숙아의 체중이 작은 것을 고려하여 이와 같은 진단기준 대신에 두께와 길이를 체중으로 나눈 유문근지표(pyloric muscle index)를 계산해야 한다는 보고들이 있다^{10,11)}. 본 증례에서도 발병초기에는 초음파 검사로 유문협착증의 진단이 불가능하였으나 정기적인 추적 검사로 점점 유문부의 협착이 진행되면서 진단이 가능하게 되었다. 만삭아의 경우에도 초음파상으로 진단이 불명확할 경우 위장관 조영술이 도움이 되는 경우가 있는데 미숙아에서도 위장관 조영술은 확진을 위해 중요한 검사로 보고되어 있다¹²⁾. 본 증례에서도 모두 위장관 조영술에 의해 확진이 가능하였다.

유문협착증의 수술적 치료는 미숙아의 유문부가 만삭아보다 더 얇고, 움직이기 쉬워 다소 어렵기는 하지만 유병률이나 사망률이 높지 않은 것으로 알려지고 있다¹²⁾. 만삭아의 유문협착증에서는 수술후 48시간 이내에 경구영양이 충분히 가능한 것으로 알려져 있으나^{13,14)}, 수술후 합병증으로 구토가 지속되는 경우도 보고되어 있고¹⁵⁾, 미숙아에

서는 이와 같은 회복 속도가 다소 느릴 가능성도 있다. 본 증례 2에서는 수술후 7일까지도 경구 영양이 충분히 이루어지지 않고 구토가 지속되어 재수술까지 고려하기도 하였으나 수술후 19일째부터 점진적으로 구토가 소실되고 경구 영양이 가능하여졌다.

요 약

미숙아에서 유문협착증은 매우 드문 질환으로 증상이 비전형적이고 한번의 복부 초음파 검사로 진단이 어렵다. 저자들은 구토와 수유 곤란이 발생한 미숙아에서 계속적인 복부 초음파 검사와 위장관 조영술로 유문협착증으로 진단하였고 수술후 증세 호전되어 퇴원한 2례를 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Bloch CE. Die angeborene Pylorusstenose und ihre Behandlung. Jahrbuch Kinderheilkd 1907; 65: 337-352.
- 2) Benson CD, Lloyd JR. Infantile pyloric stenosis: a review of 1120 cases. Am J Surg 1964; 107, 429-433.
- 3) Ford N, Brown A, McCreary JF. Evidence of monozygosity and disturbance of growth in twins with pyloric stenosis. Am J Dis Child 1941; 61: 41-53.
- 4) Wilson MG. Pyloric stenosis in premature infants. J Pediatr 1960; 56: 496-497.
- 5) Bisset RAL, Gupta SC. Hypertrophic pyloric stenosis, ultrasonic appearances in a small baby. Pediatr Radiol 1988; 18: 405.
- 6) Henderson JL, Mason Brown JJ, Taylor WC. Clinical observations on pyloric stenosis on premature infants. Arch Dis Child 1952; 27: 173-178.
- 7) Cosman BC, Sudekum AE, Oakes DD, de Vries PA. Pyloric stenosis in a premature infant. J Pediatr Surg 1992; 27: 1534-1536.
- 8) Evans NJ. Pyloric stenosis in premature infants after transpyloric feeding. Lancet 1982; 2: 665.
- 9) Teele RL, Smith EH. Ultrasound in the diagnosis of idiopathic hypertrophic pyloric stenosis. N Engl J Med 1977; 296: 1149-1150.

- 10) Kofoed PEL, Host A, Ellie B, Larsen C. Hypertrophic pyloric stenosis: determination of muscle dimension by ultrasound. *Br J Radiol* 1988; 61: 19-20.
- 11) Carver RA, Okorie M, Steiner GM, Dickson JAS. Infantile hypertrophic pyloric stenosis-Diagnosis from the pyloric muscle index. *Clin Radiol* 1988; 38: 625-627.
- 12) Janik JS, Wayne ER. Pyloric stenosis in premature infants. *Arch Pediatr Adolesc Med* 1996; 159: 223-224.
- 13) Poon TSC, Zhang AL, Cartmill T, Cass DT. Changing patterns of diagnosis and treatment of infantile hypertrophic pyloric stenosis: a clinical audit of 303 patients. *J Pediatr Surg* 1996; 31: 1611-1615.
- 14) Zhang AL, Cass DT, Dubois RS, Cartmill T. Infantile hypertrophic pyloric stenosis: A clinical review from a general hospital. *J Paediatr Child Health* 1993; 29: 372-378.
- 15) Hulka F, Harrison MW, Campbell TJ, Campbell JR. Complications of pyloromyotomy for infantile hypertrophic pyloric stenosis. *Am J Surg* 1997; 173: 450-452.