

쇄항을 동반한 Colonic Web 1례 보고

전남대학교 의과대학 외과학교실 소아외과분과

최수진나 · 정상영 · 김신곤

= Abstract =

Colonic Web Associated with Imperforate Anus

SJN Choi, M.D., SY Chung, M.D., and SK Kim, M.D.

*Division of Pediatric Surgery, Department of Surgery
Chonnam National University, Kwangju, Korea*

Colonic atresia is the least common form of intestinal atresia. Colonic atresia, like jejunoileal atresia, mostly occurs as a result of an intrauterine vascular accident. According to Sutton's classification, type 1 colonic atresia exhibits external continuity with an intraluminal diaphragm (colonic web) which may be imperforate or perforate. Authors experienced a case of colonic web associated with imperforate anus. The patient was treated under the impression of the high type imperforate anus. Posterior sagittal anorectoplasty at the age of 9 months revealed normal anorectal canal. At the age of 12 months, colostomy was repaired. Thereafter abdominal distension was developed. Barium enema noted a membranous obstruction of the colon on the level of the rectosigmoid junction. After excision of the colonic web, the patient was discharged with no problem.

Index Words: Imperforate anus, Colonic web

서 론

선천성 대장폐쇄증은 신생아에서 하부장관폐쇄를 일으키는 드문 원인 질환의 하나로 구토, 심한 복부 팽만증, 태변 배설 장애 등을 일으켜 다른 장폐쇄 원인과 감별을 필요로 하는 질환이다.

공장이나 회장 등 소장 폐쇄증은 보다 흔한 질환으로 폐쇄 부위의 절제 및 일차 봉합술이 기본 수술로 되어 있으며 결과도 양호한 것으로 알려져 있으나, 대장폐쇄증은 일차 봉합술이 기술적으로 어려울 뿐만 아니라, 단계적 수술을 필요로 하는 경우

가 많다^{1,2}.

대장폐쇄증 중에 대장의 외부 연속성이 유지되면서 강내 격막 (intraluminal diaphragm)에 의해 완전 폐쇄된 경우를 대장의 막성폐쇄라 하며 이 막성 폐쇄를 가진 colonic web도 대장폐쇄증이라 할 수 있다. 이 경우는 막절제 수술만으로도 대장폐쇄증의 충분한 치료가 된다.

선천성 대장폐쇄증은 합지증, 다지증, 곤봉지 등의 골격기형과 심장기형, 공장폐쇄증, 신경절세포결여증, 복벽결손증 등의 여러 기형과 동반될 수 있는데³⁻⁵, 저자들은 최근 쇠항에 대장의 막성폐쇄증이 동반되어 있는 환아를 치료하였기에 문헌 고찰

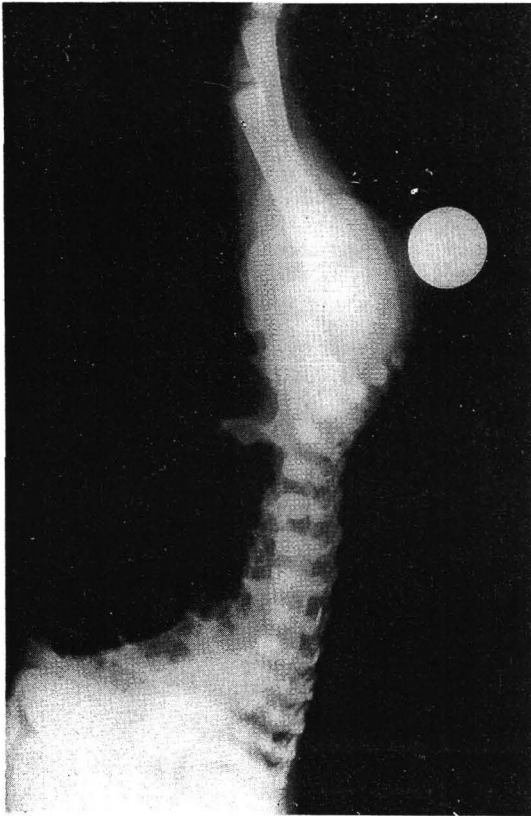


Fig. 1. Invertogram, taken 48 hours after birth, was interpreted as a suggestive finding of high type imperforate anus.

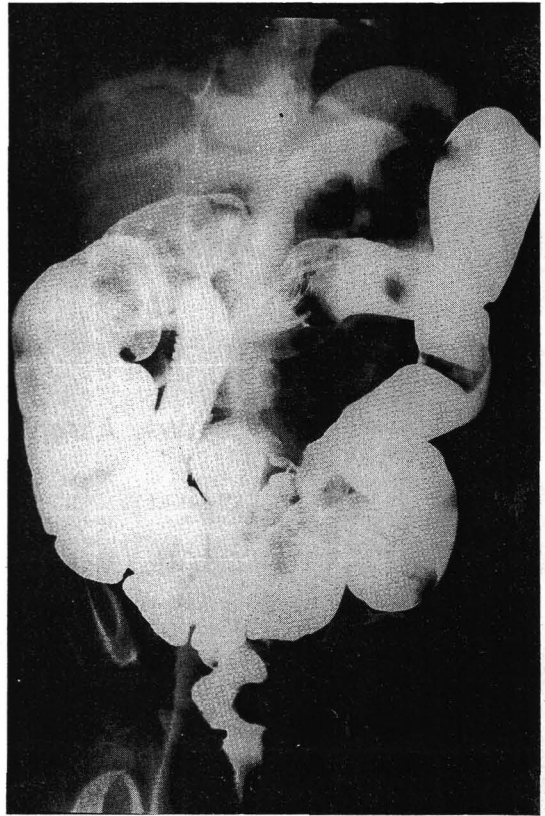


Fig. 2. Colon study before colostomy repair shows no passage disturbance. The site of the colonic web is masked by the overlapping shadows.

과 더불어 보고하는 바이다.

증 례

환아는 몸무게 2.7kg, 만삭 질식분만한 생후 2일 된 여아로 심한 복부팽만과 태변배출장애를 주소로 개인 병원을 경유하여 내원하였으며, 이학적 검사상 심한 복부팽만을 보이고 있었고, 항문의 외부 개구부가 없는 것 외에 외견상 비교적 건강해 보였다.

내원 당시 시행한 검사실 검사소견을 보면 말초 혈액검사에서 백혈구가 $27,000/\text{mm}^3$ 으로 증가되어 있었고, 혈색소 18.4g/dl, 적혈구 용적 53.2 %, 혈소판 $296,000/\text{mm}^3$ 이었으며, 혈청화학 간기능 검사상 AST가 77 units/L로 약간 증가된 것 외에 전해질 검사, 소변 검사, 심전도 검사 등에서 이상 소견은 없었다.

단순복부X선촬영상가스로 충만된 심한 장팽대를 보였고, 도위촬영(invertogram)상 고위형의 쇠창(그림 1)이 의심되어 저자들은 횡행결장조루술을 시행하였다.

생후 9개월째에 비뇨생식기와의 누공 여부를 보기 위해 방광조영술을 시행하였는데 어떠한 누공도 관찰되지 않아 후방정중항문성형술(posterior sagittal anorectoplasty)을 시행하였으며, 이 때 관찰된 쇠창은 저위형이었고 항문-직장관은 정상 소견을 보였다.

생후 1년째에 대장조영술을 시행하였으나 조영제의 통과장애를 보이지 않은 것으로 판단되어(그림 2), 횡행결장루를 복원하였다. 그러나, 수술 직후부터 가스배출장애와 심한 복부팽만이 진행되었다. Foley catheter를 항문을 통해 삽입하였으나 직장-S상결장 이행부에서 더 이상 진행되지 않았으며,

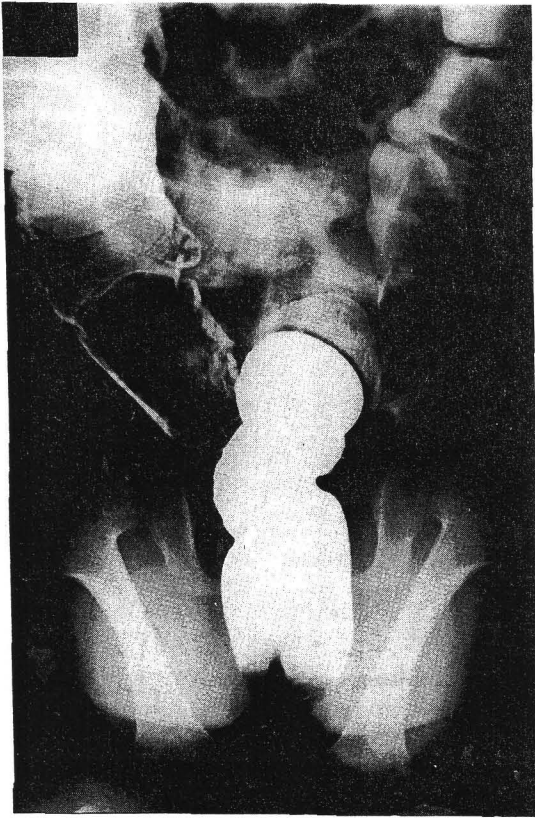


Fig. 3. Colon study after colostomy repair demonstrates the membranous obstruction of the colon.

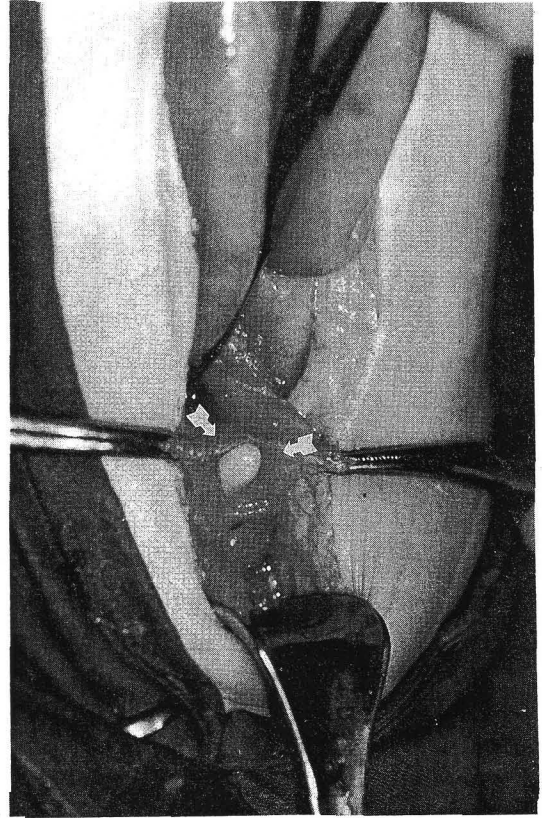


Fig. 4. Both laterally retracted membrane is colonic web and Foley catheter through excised colonic web is shown on the operation field.

단순복부촬영상 가스로 충만된 심한 장관 팽대를 나타내었다. 소장조영술을 시행하였으나 통과장애를 보이지 않았고 대장조영술을 다시 시행한 결과 직장-S상결장 이행부에서 막에 의해 대장이 폐쇄(그림 3)된 것이 관찰되어 개복술을 시행하였다. 수술 소견상 장관은 심하게 팽대되어 있었고, 직장-S상결장 이행부 상부가 약간 두꺼워져 있었으며 내강은 격막에 의해 폐쇄 되어 있어, web 절제술을 시행하였다. 그림 4는 web 절제 후 항문을 통해 삽입된 Foley catheter가 절제 부위를 통해 S상결장으로 진행되고 있는 것을 보여주고 있다. 수술 후 환자의 상태는 양호하였으며 합병증이나 후유증 없는 상태로 퇴원하였고, 퇴원 후 대장조영술상 이상 소견을 보이지 않았다.

고 안

대장폐쇄증은 선천성 위장관폐쇄증 중 가장 드문 형태로 위장관폐쇄증 중 약 5-15%에서 발생하고, 출생아 1,500명 내지 20,000명 당 1명의 빈도로 보고되고 있으며^{1,7}, 대장의 어느 부위에도 생길 수 있으나 상행결장에 가장 흔하게 발생하는 것으로 알려져 있다^{2,7}.

대장폐쇄나 협착을 일으키는 기전이나 확실한 원인이 밝혀져 있지는 않으나, Moutsouris⁸는 태생기 6-7주 때는 태아 장관계가 상피세포로 채워져 있다가 태생기 8주 때 상피세포의 증식이 퇴화하여 10주 때 내강을 형성하므로 내강 형성이 안되면 위장관폐쇄증을 일으킨다고 하였으나, 현재는 태생기 개실험을 토대로 Barnard⁹와 Louw¹⁰가 주장한 혈관 손상 학설이 가장 인정되고 있다. 이 설에 의하면

태아의 장관탈출증(fetal herniation), 꼬임(kinks), 장중첩증, 염전증이 일어나거나 일차적인 혈관사고에 의해 혈액공급이 차단되면 이에 영향을 받은 장관 분절에 위축이나 완전한 폐쇄가 일어나 장애를 초래할 수 있다는 것이다^{2,3,7}.

대장폐쇄의 분류에는 여러 가지가 있으나 Sutton의 선천성 소장폐쇄의 분류¹¹가 많이 이용되고 있으며 이는 혈관장애(vascular insult)의 정도에 따라 다음의 3 형태로 분류된다. Type 1은 대장의 외부 연속성이 유지되면서 강내 격막에 의해 완전 혹은 불완전하게 폐쇄된 경우이고, type 2는 cord 같은 구조물에 의해 폐쇄절이 연결되어 있고, type 3은 폐쇄절이 완전히 분리되고 이에 상응하는 장관막의 결손이 있는 경우이다. 저자들이 경험한 colonic web은 대장의 막성폐쇄 나타내는 경우이므로, type 1 대장폐쇄증이라 할 수 있다.

Benson 등¹에 의하면 대장폐쇄증 22예 중 type 1이 6예, type 2가 7예, type 3가 8예 있었고 1예에서 대장협착증을 보였으며 대개의 경우는 단순 복부X선촬영으로 진단이 가능하다고 하였다. 22예 중 11예는 splenic flexure 상부에 발생하여 일차 봉합술을 시행하였고, 10례는 splenic flexure 하부에 발생하여 결장조루술 후 10-12개월 때에 폐쇄 부위를 절제하고 단단문합술을 시행하였는데, 22예 중 16례에서 생존하여 72.6%의 생존률을 보였으며 폐쇄 부위와 생존률과는 상관 관계가 없다고 하였다.

Boles 등²은 11예의 대장폐쇄증 환자에서 type 1이 1예, type 2가 2예, type 3가 8예 였는데, 동반된 기형으로는 복벽결손증이 4예 있었으며, 단계적 수술을 하였는데 1차 결장조루술을 하고 난 후 2차 단단문합술을 시행하였는데 11예 중 10예에서 생존하였고 1예는 패혈증으로 사망하였다고 하였다.

Defore 등¹²은 대장폐쇄증이 진단이 늦어지면 수분과 전해질 손실에 의한 심한 탈수증으로 사망한다고 하였으며, 대장폐쇄증 10예 중 3예는 수술후 폐합병증으로 사망하였다고 하였고, 만약 치료를 하지 않으면 대장괴사를 일으켜 복막염이 초래되어 패혈증으로 사망하므로 반드시 조기 진단이 필요하다고 하였다. 또한 사망률이나 이환율에 영향을 주

는 인자로는 부적절한 치료나 미숙아 그리고 동반 기형 등이 있으며 이것에 의해 예후가 결정되어진다고 하였다.

Philippart 등⁵은 대장폐쇄증에서 동반 기형은 36예 중 14예에서 볼 수 있었다고 하였는데 6예에서 방광장관열구(vesicointestinal fissure)를 볼 수 있었고, 3예에서 복벽결손증을, 5예에서는 공장폐쇄증을 동반 하였다고 하였다. 또한 신경절세포결여증을 동반한 환아도 1예 있었다고 하였는데, Akgur 등³과 Haffner 등¹³은 이제까지 보고된 신경절세포결여증을 가진 대장폐쇄증 7예는 전예에서 상행결장에서 부터 하행결장까지 중결장동맥의 영양공급을 받는 부위가 전부 대장결손을 보였고 이때 하행결장 부위의 신경절에 이상을 동반하는 것은 혈액순환장애로 enteric neuroblast의 이동에 장애가 온 것이라고 하였다. 그러므로 Williams 등¹⁵은 대장폐쇄증으로 수술을 시행받은 뒤에도 기능적 폐쇄증이 있을 때는 신경절세포결여증의 동반 가능성을 염두해 두어야 한다고 하였다. 또 Moore¹⁴는 splenic flexure의 대장폐쇄증 1예에서 하부결장이 없고, 상부결장에도 허혈성 병변을 보인 경우를 보고하기도 하였다. Powell 등⁶도 23예 중 8예에서 동반 기형을 보고하였는데, 3예가 복벽결손증이었고 2예가 신경절세포결여증이었다고 하였다.

저자들의 경우는 쇄항을 동반한 대장폐쇄증이었는데, 처음 진단시 고위 쇄항으로 생각하고 횡행결장조루술을 시행하였고, 후방정중항문성형술 시술시 항문-직장관이 정상 소견을 보여 항문성형술만 시행하였다. 결장루 복원술 후 장폐쇄 증상이 발생하여 이 때 시행한 대장 조영술상 직장-S상결장 이행부의 막성폐쇄를 발견하였기에 재수술로 이를 교정하였다. 이러한 현상을 돌이켜보면 결장루 복원술 전 대장조영술에서 부분적 막성폐쇄가 인지되지 않았는데, 이는 소장내 조영제상과 환부가 겹쳐진 영상으로 인한 판독착오에 기인하였던 것으로 판단된다. 이에 문헌고찰과 더불어 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Benson CD, Lotei W and Brough AJ: Congenital atresia and stenosis of the

- colon. J Pediatr Surg 3:253-257, 1968
2. Boles EH, Vassy LE, and Ralston M: Atresia of the colon. J Pediatr Surg 11: 69-75, 1976
3. Akgur FM, Tanyel FC, Buyukpamukcu N, and Hicsonmez A: Colonic atresia and Hirschsprung's disease association shows further evidence for migration of enteric neurons. J Pediatr Surg 28:635-636, 1993
4. Erskine JM: Colonic Stenosis in the New-born: The possible thromboembolic etiology of intestinal stenosis and atresia. J Pediatr Surg 5:321-333, 1970
5. Philippart AI: Atresia, Stenosis, and Other Obstructions of the Colon, in Welch KJ, Randolph JG, Ravitch MM, O'Neill JA Jr, Rowe MI(eds): Pediatric Surgery(ed 4), Chapter 104. Chicaco, Year Book Medical Publishers, 1986, Pp984-988
6. Powell RW and Raffensperger JG: Congenital clonic atresia. J Pediatr Surg 17: 166-170, 1982
7. Powell RW: Colon atresia, in Raffensperger JG(ed): Swenson' Pediatric Surgery (ed 5), chapter 67. Norwalk, Appleton Lange, 1990, pp539-541
8. Moutsouris CHR: The "Solid Stage" and congenital intestinal atresia. J Pediatr Surg 1:446-450, 1966
9. Barnard CN, Louw JH: The genesis of intestinal atresia. Minn Med 39:745, 1956
10. Louw JH: Investigations into the etiology of congenital atresia of the colon. Dis Colon Rectum 7:471-478, 1964
11. Bland-Sutton JD: Imperforate ileum. Am J Med Sci 98:457-462, 1889
12. Defore WW Jr, Garcia-Rinaldi R, Mattox KL, and Harberg FJ: Surgical management of colon atresia. Surg Gynecol Obstet 143:767-769, 1976
13. Haffner JFW and Schistad G: Atresia of the colon combined with Hirschsprung's disease ; A case report. J Pediatr Surg 4:560-562, 1969
14. Moore T: Atresia of the colon at splenic flexure with absence of the distal colon and ischemic destruction of the proximal colon ; case report. J Pediatr Surg 13:89-90, 1978
15. William MD Burrington JD: Hirschsprung's disease complicating colon atresia. J Pediatr Surg 28:637-639, 1993