

재발성 장중첩증에 대한 임상적 분석

단국대학교병원 소아외과

박민재 · 이두선

Clinical Evaluation of Recurrent Intussusception

Min Jae Park, M.D., Doo Sun Lee, M.D.

*Division of Pediatric Surgery, Department of Surgery, Dankook University College of Medicine
Cheonan, Korea*

To evaluate the clinical findings of the recurrent intussusception, 351 patients with 445 intussusceptions were reviewed. Recurrence rate, pattern of recurrence, reducibility, pathologic lead points (PLP), and operative findings and long term follow up of the multiple recurrences were analyzed. Of 351 patients, 303 had no recurrence, 26 had one recurrence, and 22 had multiple recurrences. Over all recurrence rate was 16.4% ; 18.5% were managed by air reduction, 16.2% by barium reduction and 5.9% by operation. Eleven PLPs were proved operatively and an additional 6 suspected PLPs were depicted radiologically. The most frequent PLP was ileal lymphoid hyperplasia. Intervals between reduction and recurrence were less than 2 weeks in 31 cases, between 2 weeks and 1 year in 55, and more than 1 year in 8. The longest interval was 2 years and 4 months. (J Kor Assoc Pediatr Surg 9(1):24~29, 2003.

Index Words : *Intussusception, Recurrence, Pathologic lead point*

서 론

소아의 장중첩증은 성인에서와는 달리 대부분 특별한 병적유도병변 (PLP; Pathologic lead point)이 없이 특발적으로 발생한다. 또한 진단 및 치료의 원칙이 확립되어 있고 치료 성적도 양호한 편이나 재발이 잘되는 특성을 갖고 있다. 장중첩증의 치료는 관장 정복술과 수술적 정복술이 있으며 관장 정복술은 바리움의 전통적으로 사용이 되어 오다가 정복

술 중 장 파열이 발생할 경우 심각한 합병증을 일으킬 수가 있어, 보다 안전한 방법으로 공기나 생리식염수를 많이 사용하는 경향이다. 어느 방법으로 정복을 하든지 재발이 가능한 것으로 알려져 있으며, 재발이 잘 될 때 병적인 유도 병변이 있을 가능성이 높아지며 수술적 치료가 고려되기도 한다.

이에 저자들은 1994년 5월부터 2001년 10월까지 장중첩증으로 입원 치료를 받은 환자 351명의 의무기록을 분석하여 전체적인 재발률과, 정복술 방법에 따른 재발률의 비교, 정복술 후 재발까지의 기간, 재발 횟수와 유도 병변과의 관계 등을 분석해 보고자 하였다.

Correspondence : Doo Sun Lee, M.D., Division of Pediatric Surgery, Department of Surgery, Dankook University College of Medicine, San 29 Anseo-dong, Cheonan 330-715, Korea

이 연구는 단국대학교 대학연구비의 지원으로 이루어졌음.
본 논문의 취지는 2001년 11월 서울에서 개최된 제53차 대한외과학회 추계통합학술대회에서 발표되었음

연구대상 및 방법

1994년 5월 개원 이래 2001년 10월까지 7년 6개월간 단국

대학교 의료원에서 입원 치료를 받은 351명의 환자에서 발생한 445건의 장중첩증을 대상으로 하였으며, 그들의 의무기록을 후향적으로 분석하여 재발성 장중첩증의 빈도, 정복술 방법에 따른 재발률의 비교, 정복술 후 재발까지의 기간, 재발 횟수와 병적유도병변 유무와의 관계 등을 분석하였다. 비수술적 정복술에서 공기 정복술과 바리움 정복술 중 어느 것을 선택하느냐에 대한 기준은 없었으며 초창기에는 대부분 바리움 관장을 많이 이용하였고 후반부에는 주로 공기 관장을 이용하였으며 때로는 시술자의 선호도에 의해서 결정되었다. 장중첩증 발병연령은 처음 발병하여 병원을 방문한 초발 연령을 기준으로 하였다. 통계학적 처리는 chi-square 및 t-test을 이용하였으며 p 값이 0.05 이하일 때 통계학적 의미가 있는 것으로 하였다.

결 과

1. 연령 및 성별 분포

초발 연령 분포는 1세 미만이 237명, 1세 이상 2세 미만이 71명, 2세 이상이 43명이었다. 성별 분포는 남아 241명, 여아 110명으로 남녀의 비는 2.2 : 1 이었다. 초발 당시의 평균 나이는 13.0개월로 남아가 13.3개월, 여아가 12.2개월이었다. 재

발은 48명에서 94건 재발하였으며 (표 6), 재발했을 당시를 기준으로 한 연령 및 성별 분포는 1세 미만에 발생이 41 건, 1세 이상 2세 미만이 33건, 2세 이상이 20건이었으며, 남녀의 비는 2 : 1이었다. 재발 당시의 평균 나이는 16.4개월로 남아는 17.9개월, 여아는 13.3개월이었다 (표 1).

2. 정복술 방법과 재발률

총 351명의 환자에서 445건의 장중첩증이 발생하였으며, 이 가운데 공기 정복술이 395회, 바리움 정복술이 45회 시도되었다 (표 2). 5명의 환자에서는 복부팽만등 상태가 중하여 비수술적 정복술의 시도 없이 직접 수술적 정복술을 시행하였다.

1) 공기 정복술

총 395회의 공기 정복술을 시도하여 340회에서 성공하여 성공률은 86.1%였으며 55회에서 실패하여 수술적 정복술로 전환하였다. 340회의 성공적 공기 정복술 후 63회의 경우에서 재발하여 18.5%의 재발률을 보였다.

2) 바리움 정복술

총 45회의 바리움 정복술 중 37회에서 성공하여 성공률은 82.2%였으며 8회에서 실패하였다. 37회의 성공적 바리움 정

Table 1. Age and Sex Distribution at the First Attack and Recurrence

Age	First attack			Recurrence		
	Male	Female	Total	Male	Female	Total
1-2 m	5	3	8			
2-3 m	9	7	16			
3-4 m	17	8	25	1	1	2
4-5 m	23	13	36		3	3
5-6 m	18	10	28	3	3	6
6-7 m	19	12	31	2		2
7-8 m	16	8	24	5	3	8
8-9 m	11	10	21	6	2	8
9-10 m	16	3	19	2	1	3
10-11 m	9	3	12	4	2	6
11-12 m	13	4	17	3		3
1-2 yr	51	20	71	20	13	33
2-3 yr	19	4	23	10	1	11
3-4 yr	7	2	9	3		3
4-5 yr	5	2	7	4	2	6
5-6 yr	2		2			
6yr-	1	1	2			
Total	241	110	351	63	31	94

Table 2. Non-operative Reduction

Reduction	Number of trial	Success	Fail(conversion to operation)
Air reduction	395	340	55
Barium reduction	45	37	8

$$\chi^2(1) = 0.20, Pr > \chi^2 = 0.65$$

Table 3. Operation

Operation	Number of operation	Recurrence
Manual reduction	45	4
Spontaneous reduction*	6	0
Bowel resection (Failure of manual reduction)	17	0
Total	68	4

*Spontaneous reduction state at the time of laparotomy

Table 4. Recurrence Rate

Reduction	Successful reduction	Recurrence	Recurrence rate(%)
Air reduction	340	63	18.5 %
Barium reduction	37	6	16.2 %
Total op. (Manual reduction)	68 (45)	4 (4)	5.9 % (8.9 %)

$$\chi^2(1) = 2.67, Pr > \chi^2 = 0.263$$

복술 후 6회의 경우에서 재발하여 16.2%의 재발률을 보였다.

3) 수술적 정복술

비수술적 정복술의 시도 없이 직접 수술을 시행한 5예를 포함하여 수술적 정복술을 시행한 총 68명의 환자 중에서 6명의 경우 개복술 당시 장중첩 상황이 해소되어 있었고, 45명의 환자에서 도수 정복술을 시행하였으며, 17명에서 장절제술을 시행하였다. 68명의 수술 환자 중 4예에서 재발하여 5.9%의 재발률을 보였으며, 절제술을 시행한 환자 중에서는 재발 예가 없었고, 45예의 도수정복 예 중 4예에서 재발하여 8.9%의 재발률을 보였다 (표 3).

3. 병적 유도 병변

68예의 수술적 치료를 한 경우에서 병적 유도 병변 (PLP)이 발견되었던 환자는 11명이 있었으며, 그 가운데, 회장의 림프양 증식증이 4예, 회장의 폴립이 1예, 회맹판에 인접한 림프절 비대가 3예, 충수돌기의 림프양 증식증이 1예 (7회 재발), 회장의 adenomyoma 1예, 맥켈씨 계신증 1예 (3회 재발)

였다 (표 5). 수술은 하지 않았으나 영상진단에서 PLP로 추정되었던 증례가 6예가 있었는데, 초음파 검사에서 중첩 부위에서 림프절이 발견된 증례가 2예 있었으며 또한 다발성 재발예에서 공기정복술 후 바리움 조영술을 시행하여 회장 말단부에 림프양 증식증이 증명되었던 증례가 4예가 있었다. 그러나 수술적으로 증명된 것이 아니기 때문에 통계적 분석에서 제외하였다.

4. 재발 횟수

전체 351명 중 303명은 재발이 없었으며, 1회의 재발을 보인 경우가 26예, 2회 재발이 11예, 3회 재발이 5예, 4회 재발이 3예, 5회 재발이 1예였으며, 7회 재발한 경우가 2예 있었다 (표 6).

5회 이상 재발 예를 간략하게 기술하면 다음과 같다.

(증례 1) 1995년 11월 29일생 남아로 1996년 7월 8일 장중첩증을 타 병원에서 바리움 정복술로 정복하고 귀가한 다음

Table 5. Pathologic Lead Points

Type	Case
Ileal lymphoid hyperplasia	4
Ileal polyp	1
Enlarged lymphnode near I-C valve	3
Ileal adenomyoma	1
Meckel diverticulum*	1
Lymphoid hyperplasia of the appendix†	1
Total	11cases

*3 times recurrence, †7 times recurrence

Table 6. Number of Recurrence

Times	Case
once	26
twice	11
3 times	5
4 "	3
5 "	1
7 "	2
Total	48

날 다시 재발하여 본원에 와서 공기 정복술로 정복되었다. 그 후 농월 19일과 25일 그리고 1개월 후인 8월 27일 각각 재발하여 공기 정복술로 정복되었다. 소장과 대장촬영을 시행하였으나 PLP는 발견되지 않았다. 1997년 2월 19일 다시 재발하여 공기 정복술을 시도하였으나 실패하여 수술을 하였다. congenital ileocecal band가 관찰되어 절제하였으나, 중첩증의 시작점은 회맹판에서 10cm 근위부로 이것이 PLP로는 생각되지 않았다.

(증례 2) 1994년 1월 27일생 여아로 1995년 12월 20일부터 1996년 1월 12일까지 2 3일 간격으로 7차례 장중첩증이 발생하여 외래에서 공기 정복술을 시행하고 귀가하였다. PLP의 가능성이 있어 바리움 관장을 한 결과 맹장 내 폴립이 의심되어 대장경을 통한 절제를 시도하였으나 너무 커서 실패하였다. 1996년 1월 20일 다시 재발하여 수술을 시행하였다. 맹장 폴립으로 생각되었던 것은 충수맹장형 중첩증이었으며 충수돌기는 림프양 증식증으로 돌처럼 굳어 있었고 충수절제술 후에 재발이 없었다.

(증례 3) 1998년 4월 9일생 남아로 1999년 1월 12일 장중첩증이 발생하여 본원에서 공기 정복술을 시행하였으나 같은 해 10월 6일, 12월 13일과 16일 각각 재발하여 공기 정복술로 정복되었다. PLP의 가능성을 배제하기 위하여 대장 촬영을 하였으나 특이 소견을 발견하지 못하였다. 다시 1년 6개월 후 2001년 6월 26일과 6월 29일 각각 재발하여 공기 정복술로 정복하였다. 소장 촬영을 시행하였으며 림프양 증식증 소견을 보였다. 다시 1년 6개월 후인 2002년 12월 20일과 22일 각각 재발하여 공기 정복술을 시행하였다.

5. 병적 유도 병변 (PLP)과 재발과의 관계

PLP가 확인된 11예를 분석해 보면 9예는 술전에 PLP가 있을 가능성의 의심이 없이 비수술적 정복술을 시도하였으나 실패하여 수술하였던 증례들로 회장의 림프양 증식증 4예, 회장의 폴립 1예, 회장의 adenomyoma 1예 및 회맹판에 인접한 비후된 림프절 3예였다. 이들은 병변 절제 후 재발이 없었다. 3회의 재발을 보였던 1예는 맥켈 계실증으로 1일 내지 2일 간격으로 3회의 재발을 보여 PLP가 의심되어 수술을 하였다. 7회의 재발을 보였던 충수맹장형 중첩증 1예는 전향에서 증례 2로 기술한 바 대로 2-3일 간격으로 자주 재발하여 충수절제술을 시행하였다. 또한 다발성 재발예에서 공기 정복술 후 바리움 조영술을 시행하여 회장 말단부에 림프양 증식증이 의심되었던 증례가 4예가 있었다. 그 중의 1예는 7

회의 재발 예로 전향의 증례 3이다.

6. 정복술 후 재발까지의 기간

정복술 후 재발까지의 기간은 본원에서 정복술을 시행한 경우와 타병원에서 정복술 후 재발하여 본원에 온 증례 중 조사가 가능한 5예를 포함하였으며, 2주 이내가 31회, 10일 이상 1년 사이가 55회이었다. 1년 이상 경과 후 재발한 경우가 8회였고, 최장 기간은 2년 4개월이었다.

고 찰

장중첩증은 재발률이 비교적 높은 질환이다. 재발률에 영향을 주는 요인들은 정복술의 방법, 병적 유도 병변의 유무 등이 거론되고 있다¹⁻⁹. 비수술적 정복술은 전통적으로 바리움이 사용되어 오다가 정복술 도중 장파열이 발생했을 때 심각한 합병증이 우려되어 보다 안전하다고 생각되는 공기 혹은 생리 식염수 등이 많이 사용되는 추세이다¹⁰⁻¹³. 정복술 방법에 따른 재발률을 보면 수압을 이용한 바리움 관장이나 공기압을 이용한 비수술적 방법이 수술적 도수 정복술보다 재발률이 높은 것으로 알려져 있다^{3,4,10}. 수술적 정복술 후 재발률은 3% 정도로 알려져 있으나⁴, 본 조사에서는 전체 수술 환자의 5.9%, 절제술을 제외한 수술 환자의 7.8%에서 재발하였다. 비수술적 정복술 후 재발률은 5% 내지 21%로 다양하다^{4,10-14}. 바리움 정복술 후의 재발률 (18%)보다 공기 정복술 후에 재발률 (9%)이 낮은 것으로 보고하는 사람도 있으나 대개의 경우는 비슷하다¹⁰⁻¹⁴. 본 조사에서는 공기 정복술 후 재발률은 18.5%, 바리움 정복술 후에는 16.2%의 재발률로 비교적 높았으나 두 군 간의 통계적인 차이는 없었다. 재발에 영향을 주는 주요 인자 가운데 병적 유도 병변 (Pathologic lead point, PLP)이 있다. 문헌에 보고된 PLP의 종류는 무수히 많다. Navarro 등 (2000)⁹은 43명의 PLP를 분석하면서 빈도가 높은 PLP로 맥켈 계실증, 폴립, H S purpura와 cystic fibrosis를 들고 있다. 본 조사에서는 11예에서 수술적 소견과 병리학적으로 PLP로 추정되었으며 그 가운데 회장의 림프양 증식증 4예, 회맹판에 인접한 림프절 비대 3예, 회장의 폴립 1예, 충수돌기의 림프양 증식증 1예, 회장의 adenomyoma 1예 및 맥켈 계실증 1예가 있었으며 이 가운데 충수돌기의 림프양 증식증의 경우는 2,3일 간격으로 7회의 재발을 일으켰고, 맥켈 계실증은 3회의 재발 후 전제되었다. 또한 수술을 하지 않았으나 다발성 재발 예에서 소

장 혹은 대장 조영술 혹은 초음파 검사를 통하여 PLP로 진단되었던 증례가 회장 말단부 림프양 증식증이 4예, 장간막 림프절 비대가 2예 있었다. 림프양 증식증은 본 연구에서 가장 빈번한 PLP로 나타났다. 림프양 증식증은 소화관 어디에나 발생할 수는 있으나 회장 말단부에 호발하며 1941년 첫 증례가 발표된 이래 드물게 보고되고 있으나 림프양 증식증의 대부분이 증상이 없기 때문에 실제 빈도는 보고되어 있는 것보다 훨씬 높을 것으로 보고 있다⁶. 림프양 증식증은 무경용종 모양을 취하며 심한 경우 유경 용종 모양으로 커지기도 하여 장중첩증의 원인이 된다⁶. 또한 양성이면서 자기 한정성 (self-limiting)이어서 자연 소실되는 경향을 보이기 때문에 일단 진단이 내려지면 보존적 치료를 하거나 심한 출혈이나 빈번한 장중첩증의 경우에는 수술적 치료를 필요로 한다⁶. 진 (1997)¹⁵도 병적 유도 병변의 가장 많은 원인으로 림프양 증식증을 지적하였다. PLP가 있을 경우 비수술적 정복술은 실패하기가 쉽고 성공한다 하더라도 곧 재발하여 수술을 선택하게 된다. 재발 횟수에 대하여 분석한 결과 전체 351명의 환자 중 303예에서는 1회 발생하고 재발이 없었으며, 1회 재발이 26예, 2회 이상 다발성 재발이 22예이었다. 7회 재발한 예도 증례 2와 증례 3과 같이 2예 있었다. 증례 1과 증례 3과 같이 다발성 재발을 보일 때에도 비수술적 정복술이 가능하다면 수술의 적응증은 아닌 것 같다^{16,17}. 그러나 수술적 정복술을 고려하는 큰 이유는 악성림프종 같은 악성 PLP의 경우 진단이 지연될 수 있다는 점과 장차 재발의 가능성을 감소시킨다는 데 있다. 그러나 수술적 정복술 후에도 재발은 가능하다. 다발성 재발례에서도 PLP를 의심하는 임상소견이나 영상진단이 없다면 비수술적 정복술이 우선 선택이다. 임상적으로 초발 장중첩증 보다는 일반적으로 재발성일 때 병원을 일찍 찾고 그렇게 함으로써 비수술적 정복률이 높은 경향을 보인다. 그러나 지난 번 중첩증 때 수술적 정복술을 했던 환자 (36.5%)보다 관장을 통한 정복술을 받은 환자에서 (75%) 관장 정복률이 높다고 하였다¹⁷. 병적 유도 병변이 분명치 않은 장중첩증에서 수술 전처치로 Dexamethasone 투여를 하면 림프양 증식증을 감소시켜 초기 재발률을 떨어뜨릴 수도 있다고 하는 실험적 보고도 있다^{7,11}. Burrington (1980)은¹⁸ 재발을 방지하기 위한 술식으로 회장 말단부를 상행결장에 고정시키는 방법을 제안하고 있다. 정복술 후 재발까지의 기간은 2주 이내의 초기 재발이 대부분이라고 알려져 있는데 반하여 본 조사에서는 2주 이 내가 31례로 33%였으며 2주 이후가 63례로 67%였다⁹.

결론

1994년 5월부터 2001년 10월까지 단국대학교 의료원에서 장중첩증으로 입원 치료를 받은 351명의 환자를 분석하여 다음과 같은 결과를 얻었다. 351명중 303명은 재발이 없었으며 48명에서 1회 이상 재발하여 전체적인 재발률은 16.4%였다. 1회의 재발을 보인 예가 26예, 2회 재발이 11예, 3회 재발이 5예, 4회 재발이 3예, 5회 재발이 1예, 7회 재발이 2예였다. 정복술 방법에 따른 재발률은 공기 정복술 후 18.5%, 바리움 정복술 후 16.2%, 수술적 치료 후 5.9%의 재발률을 보였으나 통계적인 차이는 없었다. PLP는 수술적으로 증명된 것이 11예, 방사선과적으로 진단된 경우가 6예이었으며, 가장 빈도가 높은 것은 회장 말단부의 림프양 증식증으로 4예는 수술적으로 절제되었고 4예는 비수술적으로 정복되었다. 다발성 재발례에서도 지난 번 수술적으로 혹은 방사선과적으로 PLP가 확인되지 않았다면 비수술적 정복술은 우선적으로 시도해 보아야 한다. 그러나 반드시 절제되어야 하는 PLP가 있는지는 정복술 전후에 규명하려는 노력이 필요하다. 정복술 후 재발까지의 기간은 2주 이 내가 31회 (33.0%), 2주 이상 1년 이 내가 55회 (58.5%), 1년 이상이 8회 (8.5%)였으며, 최장기간은 2년 4개월이었다.

참고문헌

1. Yang CM, Hsu HY, Tsao PN, Chang MH, Lin FY: *Recurrence of intussusception in childhood*. Acta Paediatr Taiwan 43(3):158-161, 2001
2. Daneman A, Alton DJ, Lobo E, Gravett J, Kim P, Ein SH: *Patterns of recurrence of intussusception in children: a 17-year review*. Pediatr Radiol 28:913-919, 1998
3. Stringer MD, Pablot SM, Brereton RJ: *Paediatric intussusception*. Br J Surg 79(9):867-876, 1992
4. Young DG: *Intussusception*, in O'Neill, JA Jr, Rowe MI, Grosfeld JL, Fonkalsrud EW, Coran AG(eds): *Pediatric Surgery*(ed 4), chap 77. St. Louis MO Mosby, 1998, Pp 1185-1198
5. Doody DP: *Intussusception*, in Oldham KT, Colombani PM, Foglia PR(eds): *Surgery of Infants and Children*, Chap 76. Lippincott, Raven, 1997, Pp 1241-1248
6. Lelli Jr JL, Coran AG: *Polypoid disease of the gastrointestinal tract*, in O'Neill, JA Jr, Rowe MI, Grosfeld JL, Fonkalsrud EW, Coran AG(eds): *Pediatric Surgery* (ed4), chap 86. Mosby, St. Louis MO 1998, Pp 1283-

- 1296
7. Shteyn E, Koplewitz BZ, Gross E, Granot E: *Medical treatment of recurrent intussusception associated with intestinal lymphoid hyperplasia*. Pediatrics 111(3):682-685, 2003
8. Germann R, Kuch M, Pring K, Ebbing A, Schindera F.: *Celiac disease: An uncommon cause of recurrent intussusception*. J Pediatr Gastroenterol Nutr 25(4):415- 416, 1997
9. Navarro O, Dugougeat F, Kornecki A, Shuckett B, Alton DJ, Dancman A: *The impact of imaging in the management of intussusception owing to pathologic lead points in children. A review of 43 cases*. Pediatr Radiol 30:594-603,2000
10. Kirks DR: *Air intussusception reduction: "The winds of Change"*. Pediatr Radiol 25:89-91, 1995
11. Miller SF, Landes AB, Dsutenhahn LW, Pereira JK, Connolly BL, Babyn PS, Alton DJ, Daneman A: *Ability of fluoroscopic images obtained during air enemas to depict bad points and other abnormalities*. Radiology 197:493-496, 1995
12. Palder SB, Ein SH, Stringer DA, Alton D: *Intussusception: barium or air?* J Pediatr Surg 26:271-274, 1991
13. Saxton V, Katz M, Phelan E, Beasley SW: *Intussusception: a repeat delayed gas enema increases the non-operative reduction rate*. J Pediatr Surg 29:588-589, 1994
14. Lin SL, Kong MS, Houng DS: *Decreasing early recurrence rate of acute intussusception by the use of dexamethasone*. Eur J Pediatr 159(7):551-552, 2000
15. 진시원: 장중첩증 환자의 공기압 정복. 소아외과 3(2): 126-132,1997
16. Ein SH: *Recurrent intussusception in children*. J Pediatr Surg 10:751-755, 1975
17. Fecteau A, Flageole H, Nguyen LT, Laberge JM, Shaw KS, Guttman FM: *Recurrent intussusception: safe use of hydrostatic enema*. J Pediatr Surg 31:859-861,1996
18. Burrington LD : *Surgical technique for the prevention of recurrent intussusception in childhood*. Surg Gynecol Obstet 150(40):572-573,1980.