

소아에서 급성 복증으로 오진될 수 있는 복성 간질

한양대학교 의과대학 외과학교실

심우신 · 정풍만

=Abstract=

Abdominal Epilepsy Misdiagnosed as Acute Surgical Condition in Childhood

Ooh Shin Shim, M.D., Poong Man Jung, M.D.

Department of General Surgery, College of Medicine, Hanyang University
Seoul, Korea

Abdominal epilepsy is accepted as unusual cause of abdominal pain in children and young adolescents. Although its abdominal symptoms may be similar to those of the irritable bowel syndrome, it may be distinguished from the latter condition by the presence of the altered consciousness during some of attacks, EEG abnormalities, and a good response to anticonvulsant medication. The diagnosis of abdominal epilepsy came into vogue in the 1950s and 1960s as an explanation for childhood abdominal complaints. More recently, it has been recognized that isolated vomiting without loss of consciousness or other more common paroxysmal symptoms is rarely attributable to abdominal epilepsy.

We report 4 cases of abdominal epilepsy, whose ages ranged from 8 to 11 years, with paroxysmal abdominal pain or vomiting consistent with a diagnosis of abdominal epilepsy.

Index Words: Abdominal epilepsy, Acute abdomen

서 론

복성 간질은 소아와 성인에서 발생하는 복통의 드문 원인으로 알려져 있다. 이 질환은 반복되는 급성 복통이 과민성 대장증후군(Irritable bowel syndrome)과 비슷하기는 하나, 증상 발현시에 의식의 변화 등 중추 신경계의 이상, 뇌파의 이상, 그리고 항경련제에 잘 반응한다는 특징이 있는 것으로 알려져 있다^{1,2}.

복성 간질은 1950년대와 1960년대에 걸쳐 소아에 있어서 원인을 알 수 없는 복부 증상을 호소할 때 진단되어졌으며, 최근에는 의식의 소실

이 없이도 주기적인 구토를 계속하거나 보다 보편적인 발작적 복부 증상을 설명하는데도 사용되고 있다¹⁻⁴.

저자는 주기적인 복통 혹은 구토를 주소로 내원한 환아 중 복성 간질로 진단 되어진 4예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다(표 1).

임상 증례

증례 1) : 9세의 남아가 의식의 소실을 동반한 제주위부 통증을 주소로 내원하였다. 과거력상 특이한 소견은 없었으며, 특별한 가족력도 없었

Table 1. Clinical Features of Patients

Case	Age at onset	Age at diagnosis	Sex	Chief complaint	Associated symptom	Treatment
1	8 yr 9 m	8 yr 11 m	M	Abdominal pain	Loss of consciousness	Dilantin
2	7 yr 6 m	8 yr 6 m	M	Abdominal pain	Vomiting Diarrhea	Dilantin
3	7 yr 10 m	8 yr	F	Vomiting	-	Tegretol Valproic acid
4	9 yr 8 m	11 yr 8 m	M	Vomiting	Sleep after attack	Dilantin



Fig. 1. The EEG tracing from case 3 shows a short burst of rhythmic 3 Hz spike and waves (arrows), more prominent on anterior than posterior half.

다. 환아는 내원 40일 전 상복부 통증을 호소하면서 의식을 잃어 입원하였으며, 오심 혹은 구토등의 다른 증상은 없었다. 그후 일주일을 주기로 빨작적인 복통을 호소하였으며, 복통은 오후 8~10시경에 주로 있었고 지속기간도 점점 길어졌다. 내원 당시 모든 검사 소견 및 방사선학적 검사는 정상이었다. 뇌파 소견상 과호흡 동안 중등

도의 뇌파 증강이 보이고, 대뇌의 전반부에서 고진폭의 예파(sharp wave)가 주로 12Hz로 나타나며, 간간히 고진폭의 다극파가 혼합되어 나타나는 소견을 보였다. 환아에게는 Dilantin 150mg/day를 투여하여 증상이 소실되었고, 6개월후 간헐적인 복통이 다시 재발되었으나 대중요법으로 치료하였으며, 현재 14년간 추적한 바 건강히

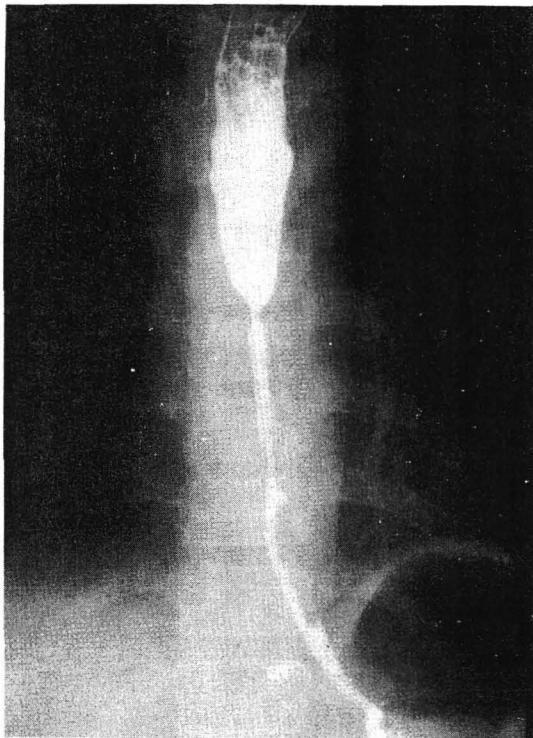


Fig. 2. The esophagogram from case 3 shows the stricture in the mid and lower esophagus with moderate disturbance of passage.

지내고 있다.

증례 2) : 8세의 남아가 우상복부 및 우하복부의 동통을 주소로 내원하였다. 과거력 및 가족력상 특이한 소견은 없었다. 환아는 내원 1년전 갑자기 복통을 호소하기 시작한 후 1~2개월 간격으로 같은 증상을 호소하면서, 간혹 구토와 설사를 동반하기도 하였다. 내원 15일 전 우하복부 동통이 있어 개인병원에서 급성 충수염으로 오진되어 충수절제술을 시행받았다. 검사 소견 및 방사선학적 검사는 정상이었다. 뇌파 소견상 주로 대뇌 전반부에서 중등도에서 고진폭의 서파가 관찰되었으며, 환아에게는 Dilantin 100mg/day를 투여하여 증상이 소실되었고, 5개월 후에 미약한 복통이 있어 입원하였으나 일주일간의 대증적 치료후에 퇴원하였다. 현재 12년간 추적 관찰한 바 건강히 지내고 있다.

증례 3) : 8세의 여아가 주기적인 구토를 주소

로 내원하였다. 과거력상 6세때 넘어져 뇌좌상으로 일주일간 입원한 이외 특별한 병력은 없었으며, 가족력에도 특이한 소견은 없었다. 환아는 내원 2개월전 갑자기 구토를 시작하여, 2주 간격으로 5일간 지속하면서 한번에 4~5분 동안 발작적인 구토를 한 후 20~30분 동안 멈추는 양상을 반복하였다. 입원 당시 식도조영술상 식도의 중 하 2/3 부위에 반복되는 구토에 의한 급성 미만성 궤양의 소견을 보였으며, 그외 두부 전신화 단층촬영을 포함한 모든 검사소견은 정상이었다. 뇌파 소견상 수초간의 3Hz의 극파 및 서파 소견이 주로 전반부에서 관찰되었고, 우측 중앙부(C₄)에서 예파(sharp wave)가 관찰되었다(그림 1). 환아에게는 Valproic acid 540mg/day를 투여하였으나, 간간이 구토가 계속되어 Tegretol 200mg/day를 추가로 투여하였다 구토는 중지되었으나 식도 궤양이 시간이 흐름에 따라 식도협착으로 진행하여(그림 2), 현재 7개월간 Esophageal ballooning을 시행중이며, 협착이 치유되지 않으면 수술을 고려중이다.

증례 4) : 11세의 남아가 주기적인 구토를 주소로 내원하였다. 환아의 과거력 및 가족력상 특이한 소견은 없었다. 환아는 2년전 차를 타고가다 구토를 시작하였으며, 3개월 간격으로 10일 동안 구토를 하나, 5일째부터는 호전되었으며, 구토기간에는 전혀 먹지 않다가 구토가 끝나면 식욕이 증가되는 양상을 보였다. 내원당시 검사 소견은 정상이었으며, 상부위장관 촬영상 위식도 역류에 의한 하부 식도의 심한 급성 식도염의 소견이 보였으며, 이에 의한 출혈로 Nissen's fundoplication을 시행하였으나, 그 후에도 구토물이 없는 구토가 계속되었다. 뇌파 소견상 간헐적인 예파 혹은 극파가 우측 전두부(F4) 및 중앙부(C4)에서 관찰되었으며(그림 3), 환아에게는 Tegretol 300mg/day를 투여하였으나 반응을 하지 않아 Dilantin 200mg/day를 대치하여 투여하였으며, 증상의 소실과 함께 퇴원하였다. 약물 투여후 5개월이 지난 현재, 증상의 재발없이 건강히 지내고 있다.



Fig. 3. The EEG tracing from case 4 shows intermittent ill-defined sharp wave or spikes (arrow) at right frontocentral region.

고 안

복성 간질의 개념은 과거로부터 여러 학자에 의해 그 정의가 논의되어져 왔으며, 진단을 위한 기준도 매우 모호한 것으로 알려져 있다.

복성 간질에 대해서는 1868년에 Troussseau⁵가 처음 기술하였으며, 그후 1912년에 Still⁶이 제주 위 동통을 가면 간질(masked epilepsy)의 한 형태일 것으로 생각하였다. 1944년에 Moore^{7,8}는 초점성, 중후성 간질의 한 형태로서 발작성 복통에 관하여 기술하였는데, 그는 내인성 내장 질환의 배제, 대뇌 질환 혹은 기능부전의 기왕력, 증상의 발작적인 특성, 간질양 현상의 동반, 신경학적 혹은 뇌파 소견의 이상, 항경련제의 투여로 발작이 감소하는 것 등을 진단 기준으로 제시하였다.

다. 특히 두부 손상등 대뇌질환의 기왕력을 강조하였으며, 1949년에 이르러 소위 ‘복성 편두통’(abdominal migraine)이라고 하는 것이 실제로는 복성 간질의 한 형태라고 주장하였다⁹. 한편, Prichard⁴를 비롯하여 여러 학자들은^{1,10} 복성 간질과 복성 편두통을 감별하였는데, 복성 편두통은 전형적인 편두통의 가족력이 있으며, 증상과 함께 반드시 두통을 호소하고, 복성 간질에 비해 임상 증상이 보다 점진적으로 천천히 나타나며, antimigrainous drug에 반응한다고 보고하였다. 또한, Prichard⁴는 복성 편두통에서의 뇌파는 대부분 정상이거나 단지 minor nonfocal and nonparoxysmal dysrhythmias의 소견을 보인다고 보고하였다. 근래에는 복성 간질을 local onset이 없는 범발성 비경련성 발작의 하나로서, complex-partial seizure의 ‘autonomic phenomena’로

분류하는 보고도 있다^{11,12}.

복성 간질은 소아와 성인에게서 모두 나타날 수 있으나 주로 7~10세에서 호발하며, 성별에 따른 빈도는 거의 같은 것으로 보고되어 있다¹³. 저자의 경우에도 모두 7~9세에 증상이 시작되었으며, 성별은 남아가 3예, 여아가 1예였다.

복성 간질의 병태생리는 아직까지 확실하게 알려져 있지 않으며, 뇌의 전기적 활성과 복부 증상과의 관계에 있어서는 여러가지로 설명되고 있는 바, 중추 신경계와 위장관계는 모두 복통의 원인부위로 가능하다고 하겠다. 실험에 의하면, 뇌간, 시상하부, 그리고 대뇌 피질등에 가해지는 어떤 자극은 소화관의 활동에 영향을 주며, 다양한 내장감각을 유발한다^{3,14-16}. 현재까지 알려진 바에 의하면, 측두엽 간질의 activity는 대개 편도체(amygdala)에서 발생하며, 이에 따라 편도체에서 발생한 discharge가 미주 신경의 배측 운동핵(dorsal motor nucleus)으로 가는 치밀한 돌기(projection)를 통해 소화관으로 전달됨으로써 소화기 증상을 유발시키는 것으로 보인다^{18,19}. 또한 편도체에서 소화관에 이르는 교감신경계가 시상하부를 통해서 활성화 되기도 한다고 알려져 있다¹⁸⁻²⁰. 한편으로, Ricardo 등²¹은 소화관으로부터 미주신경을 통하여 편도체에 연결되는 직접적인 교감신경계가 존재하고, 이는 장수축이 일어나는 동안에 활성화된다고 보고하여 복성 간질에 있어서 initial disturbance가 뇌에서 유발되지 않을 수 있음을 시사하였다.

복성 간질에 있어서의 동통은 갑자기 나타나면서 발작적이고 주기적인 면이 있으며 동통의 지속기간이 상대적으로 짧아서 수분에 지나지 않는다. 또한 식욕부진, 오심 혹은 구토를 동반하기도 하며 흔히 지남력장애나 정신착란등의 의식의 변화를 동반하기도 한다. 또한 발작후에는 수면을 취하거나 탈진상태에 이른다고 하며, 대개의 복성 간질에서 운동성 경력 상태는 동반되지 않는다^{1,2,3,17,22}. Papatheophilou 등¹³은 소아의 복성 간질에서 동통(88%), 구토를 동반하기도 하는 오심(80%), 창백(60%), 설사 혹은 요실금(14%), 그리고 의식의 장애(8%)등의 증상이 나타난다고 보고하였으며, Millichap 등²³은 주기적 구토를 소아간질의 한 형태로서 기술하였는데,

구토는 매우 심하고 지속적이며, 흔히 복통을 동반한다고 하였고, Metchell 등²⁴은 특히 객관적인 증후로서 구토만을 나타내는 복성 간질의 진단의 어려움을 기술하였다. 저자의 경우, 2예에서는 발작적인 복통을, 2예에서는 주기적인 구토를 주증상으로 나타내었으며, 복통은 주로 제주위부에 있었고, 복통을 호소했던 1예에서는 의식의 변화를 동반하였다.

복성 간질에 있어서 뇌파 소견은 대부분 이상을 나타내며, 그 변화의 양상은 거의 비특이적이다. 소아의 복성 간질에 있어서는 과도하게 편측 또는 양측성으로 theta activity가 출현하거나, 극파, 극서파 혹은 예파가 측두엽에 나타나는 것이 흔히 볼수 있는 뇌파 소견으로 보고되고 있다¹³. 또한 여러 학자들이 소위 '14 and 6/sec-positive spike pattern'을 복성 간질의 특이한 뇌파 소견으로 보고하였는데^{25,26}, Kellaway 등²⁵은 이것을 복성 간질을 진단하는 뇌파 소견으로 제시하였으나, 한편으로 Walter 등²⁷과 Lombroso 등²⁸은 이 현상이 얇은 수면하에서 뇌파를 얻을 경우, 소아와 젊은 성인의 50%에서 정상적으로 나타나는 것이라고 하였다. 뇌파 검사는 깨어있을 때보다는 가면 또는 수면시에 시행하는 것이 이상 소견을 감지하는데 도움이 되며¹³, 저자의 경우에도 모든 예에서 수면뇌파 소견이 진단에 유용하였으며, 2예에서는 우측 대뇌의 전반부, 2예에서는 우측 전두부와 중앙부에서 예파, 극파 혹은 서파등이 나타나는 소견을 보였다.

복성 간질은 항경련제에 잘 반응하며, 따라서 예후도 양호한 것으로 보고되고 있으며, 이러한 치료에 대한 양성 반응은 진단의 한 기준이 된다^{2,3,5,6}. 우선 선택 약물은 diphenylhydantoin이며, phenobarbital, tegretol, 그리고 valproic acid 등이 쓰여진다. Livingston²은 항경련제로 14례의 소아 복성간질 환아를 치료하여 11예에서 양성 반응을 나타내었다고 하였으며, Sheehy 등¹⁴은 12례중 10예, Schade와 Gofman¹⁹은 46예중 1예를 제외한 전 예에서 증상이 소실되거나 호전되었다고 보고하였다. 저자의 경우, 3예에서는 diphenylhydantoin을, 1예에서는 tegretol과 valproic acid를 병용하였는데, 전 예에서 증상의 호전을 볼 수 있었다.

요 약

저자들은 발작적인 복통 혹은 주기적인 구토를 주소로 내원한 8~11세의 소아 4명에서 임상 및 뇌파 소견을 종합하여 '복성간질'로 진단하고 항경련제로 치료하여 증상이 호전되어 문현고찰과 함께 보고한다. 소아에서 원인을 알 수 없는 발작적인 복통 혹은 구토가 계속될 때 복성 간질을 고려하여 뇌파 검사를 시행하고 항경련제의 투여를 고려해야 할 것으로 사료된다.

참 고 문 현

1. Douglas EF, White PT : Abdominal epilepsy -a reappraisal. *J Pediatr* 78:59-67, 1971
2. Livingston S : Abdominal pain as a manifestation of epilepsy(abdominal epilepsy) in children. *J Pediatr* 38:687-695, 1951
3. Hoefer PFA, Cohen S, Greely DM : Paroxysmal abdominal pain : A form of epilepsy in children. *JAMA* 147:1-6, 1951
4. Prichard JS : Abdominal pain of central origin. *Can Med Assoc J* 28:665-667, 1958
5. Wallis HR : Ex Masked epilepsy. *Lancet* 1: 70, 1955
6. Still GF : Common disorders and diseases of childhood. London, H. Frowde, 1912 p. 642
7. Moore MT : Paroxysmal abdominal pain : A form of focal symptomatic epilepsy. *JAMA* 124:561, 1944
8. Moore MT : Paroxysmal abdominal pain : A form of focal symptomatic epilepsy, Part II. *JAMA* 129:1233, 1945
9. Moore MT : Abdominal epilepsy versus "abdominal migraine." *Ann Intern Med* 33:122, 1950
10. Farquhar BM : Abdominal migraine in children. *Brit Med J* 1:1082, 1956
11. Vinken PJ, Bruyn GW : The epilepsies. *Handbook of clinical neurology* 15:130-144, 1974
12. Niedermeyer E : The epilepsies ; Diagnosis and management. 41-43, 1990
13. Papatheophilou R, Jeavons PM, Disney ME : Recurrent abdominal pain : a clinical and electroencephalographic study. *Dev Med Child Neurol* 14:31-44, 1972
14. Claser GH : Visceral manifestations of epilepsy. *Yale J Biol Med* 30:176-186, 1957
15. O'Brien JL, Goldensohn ES : Paroxysmal abdominal pain as a manifestation of epilepsy. *Neurology* 7:549-554, 1957
16. VanBuren JM : The abdominal aura : A study of abdominal sensations occurring in epilepsy and produced by depth stimulation. *Electroenceph Clin Neurophysiol* 15:1-19, 1963
17. Sheehy BN, Littel SC, Stone JJ : Abdominal epilepsy. *J Pediatr* 56:355-363, 1960
18. Gloor P. Amygdala. In Field J(ed), *Handbook of physiology : Neurophysiology*. Baltimore, Waverly Press, 2:1395-1420, 1960
19. Price JL, Armara DG : An autoradiographic study of the projections of the central nucleus of the monkey amygdala. *J Neurosci* 1:1242-1259, 1981
20. Saper CB, Loewy AD, Swanson LW et al : Direct hypothalamoautonomic connections. *Brain Res* 117:305-312, 1976
21. Ricardo JA, Koh ET : Anatomical evidence of direct projections from the nucleus of the solitary tract to the hypothalamus, amygdala and other forebrain structures in the rat. *Brain Res* 153:1-26, 1978
22. Schade GH, Gofman H : Abdominal epilepsy in childhood. *Pediatrics* 25:151-154, 1960
23. Millichap JG, Lombroso CT, Lennox WG : Cyclic vomiting as a form of epilepsy in children. *Pediatrics* 15:705-714, 1955
24. Mitchell WG, Greenhood RS, Messenheimer JA : Abdominal epilepsy : Cyclic vomiting as the major symptom of simple partial seizures. *Arch Neurol* 40 : 251-252, 1983

25. Kellaway P, Crawley JW, Kagawa N : A specific electroencephalographic correlate of convulsive equivalent disorders in children. J Pediat 55:582-592, 1959
26. Gibbs EL, Gibbs FA : Electroencephalographic evidence of thalamic and hypothalamic epilepsy. Neurology 1:136-144, 1951
27. Walter RD, Colbert EG, Koegler RA, et al : A controlled study of 14- and 6-per-second EEG patterns. Arch Gen Psychiat 2: 559-566, 1960
28. Lombroso CT, Schwarz IH, Clark DM, et al : Ctenoids in healthy youths : Controlled study of 14-and 6-per-second positive spiking. Neurology 16:1152-1158, 1966