

## 환상췌장 수술 후 합병된 신생아 패혈증 증례보고

예수병원 외과, 소아과\*

이철호 · 김완섭\* · 정을삼

= Abstract =

### A Case of Neonatal Sepsis after Operation of Annular Pancreas in Newborn

Chul Ho Lee, M.D., Wan Sup Kim, M.D.\*, Eul Sam Chung, M.D.

*Departments of Surgery, and Pediatrics\*, Presbyterian Medical Center,  
Chonju, Korea*

Annular pancreas is a rare congenital anomaly with the descending duodenum encircled by a ring of pancreatic tissue, which may cause partial or complete obstruction of the duodenum. In newborn, the symptoms can be those of duodenal stasis resulting from partial intestinal obstruction secondary to some degree of duodenal stenosis. A male newborn weighing 2.0 Kg was born by C-section delivery at 37 weeks' gestation to a 27-year-old mother who had a hydramnios. He was in relatively good condition at birth except regurgitation of saliva and intermittent apnea. A plain film of the abdomen showed the double-bubble of gas filled stomach and proximal duodenum, and upper gastrointestinal series showed a dilated proximal duodenum, with a complete obstruction of the descending duodenum. Intraoperative finding revealed encirclement of the duodenal second portion by pancreatic tissue. Duodenojejunostomy was performed. After the operation, he had developed two serious complications, neonatal septicemia by *Enterobacter cloacae* on postoperative day 12 and systemic candidiasis on postoperative day 19, and been managed with ventilatory support, antibiotics, and antifungal agents with recovery.

**Index Words:** Annular pancreas, Neonatal sepsis

#### 서 론

1818년 Tiedman이 환상형 췌장을 처음 기술한 이래, 1862년 Ecker가 부검 소견을 통하여 환상췌장이라 명명하였으며, 1905년 Vidal에 의해 위-공장문합술이 성공적으로 수행되었다<sup>1</sup>. 그후 전세계적

으로 수백례가 보고되면서 발생기전 및 치료법이 발표되었으며 국내에서도 성인 및 소아에서 환상췌장례 다수가 발표되었다<sup>2-6</sup>. 본원 외과에서는 최근 신생아에서 발생한 환상췌장 및 술후 발생한 신생아 패혈증 및 전신적 캔디다증을 경험하였기에 이에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

과거력상 특이사항이 없는 27세의 초산부가 재태 기간 37주에 양수과다증으로 개인 산부인과에서 제왕절개를 통해 분만된 남자 환아는 출생시 비교적 잘 울었고 활동력도 좋았으나, 구강내 분비물이 많았고 가끔씩 무호흡이 동반되어 본원 소아과로 전원되었다. 출생시 아프가치는 1분치가 8, 5분치 9로 비교적 양호한 상태이었으며 체중 2.0Kg, 신장 48cm, 두위 31.5cm 으로 저체중출생아였다. 내원 당시 체온은 36.5℃, 맥박 145회/분, 호흡 40회/분, 혈압 53/27mmHg 이었고 복부에 중등도의 팽만을 보였을 뿐, 폐 및 심장에는 이상 소견이 없었다. 간장이나 비장의 종대도 없었고 사지의 이상소견도 없었다. 입원당시 혈색소 19.5mg/dL, 적혈구 용적율 53.1mg/dL, 백혈구 12,900/mm<sup>3</sup>, 혈소판 270,000/mm<sup>3</sup> 이었고 전해질 검사상 Na 136mEq/L, K 4.9mEq/L, Cl 109mEq/L 였으며, BUN/Cr 은 각각 13/1.3을 보였다. 간기능검사상 GOT/

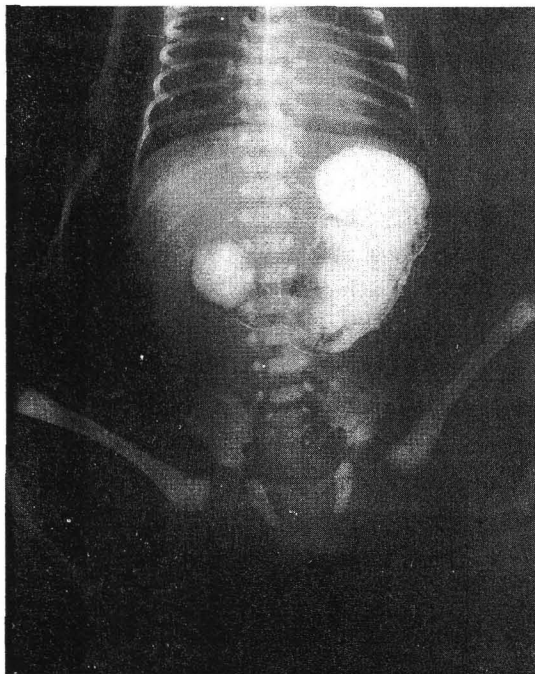


Fig. 2. Upper gastrointestinal contrast study shows dilated stomach and duodenal bulb, and complete obstruction of duodenal second portion.

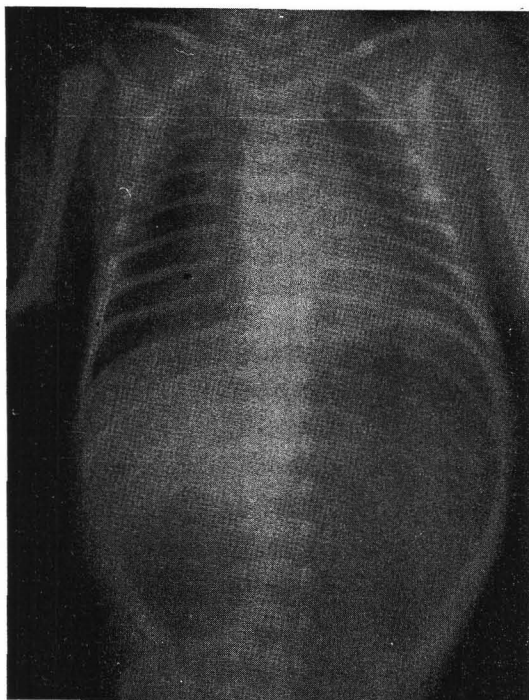


Fig. 1. Plain abdomen shows double-bubble sign and absence of gas shadow in the distal bowel.

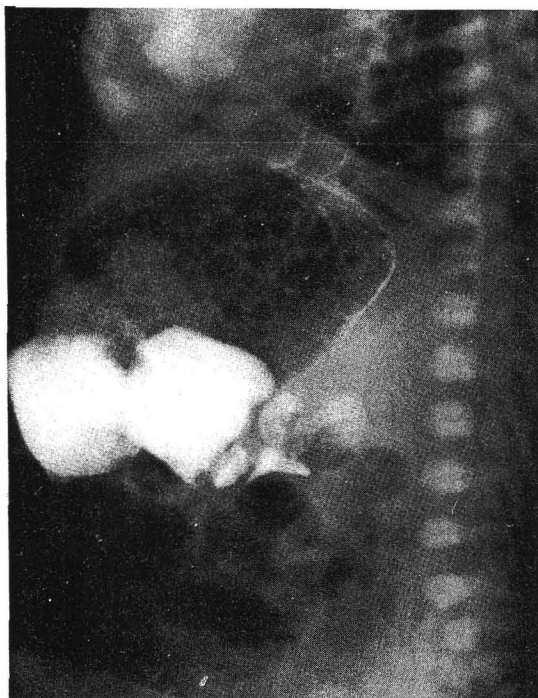


Fig. 3. Upper gastrointestinal radiogram shows delayed passage of the contrast media through the anastomotic site.

GPT는 42/1이었고, 동맥혈 검사상 pH 7.228, PaCO<sub>2</sub> 16.2mmHg, PaO<sub>2</sub> 148mmHg, HCO<sub>3</sub>- 6.8mEq/L, BE -17.5로 대사성 산증소견을 보였다. 내원당시의 복부 단순사진상(그림 1) 쌍기포 모양을 보였으며 복부 팽만이 계속 진행되어 상부위장관 촬영(그림 2)을 한 결과 십이지장 하행부가 폐쇄된 소견을 보여 외과로 전과되었다.

환아는 십이지장 폐쇄증을 의심하여 수액 및 전해질 이상을 교정한 후 생후 2일째에 응급 개복술을 시행하였다. 수술 소견상 위 및 십이지장 구상부가 확장되었고, 십이지장 하행부가 췌장조직에 의해 환상으로 둘러싸여 있었으며 십이지장 내강은 폐쇄된 상태이었다. 수술은 측측 십이지장-공장문합술을 시행하였다. 술후 2일째 환아는 과빌리루빈혈증이 발생하여 광선요법을 시작하였고 L-tube 삽입 상태에서도 담즙성 구토가 5-6회/일로 나타났다. 술후 5일째 태변이 통과되어 L-tube도 제거하고 광선요법도 종결되었다. 술후 6일째에 수유를 시작하였으나 구토가 심하여 다시 L-tube를 삽입하였다. 술후 9일째 gastrografen을 사용하여 상부위장관촬영을 시도한 결과(그림 3) 문합부위의 협착 및 위장통과시간의 지연을 보였다. 환아는 기관지 분비물이 점차 증가하여 호흡음도 거칠어졌고 술후 12일째 갑자기 무호흡 및 청색증이 발생하여 신생아 패혈증의 진단하에 항생제 및 기계식 호흡요법을 시작하였으며, 수일뒤 혈액배양 검사상 *E. cloacae*가 자란 것으로 보고되었다. 술후 16일째 다시 수유를 시도하였으나 복부 팽만이 심해져 중지하였고 계속 말초정맥 영양요법을 시행하였다. 술후 19일째 위액 및 기관류브의 배양검사상 *C. albicans*가 자라서 전신적 캔디다증의 진단하에 항진균제 치료를 하였다. 술후 26일째부터는 수유에 잘 적응하여 술후 48일째 퇴원하였다.

## 고 찰

환상췌장은 십이지장 폐쇄를 일으키는 보기 드문 선천적인 질환으로서 폐쇄의 정도에 따라 신생아나 소아, 혹은 성인에서 증세를 유발시킨다. 1818년 Tiedman이 해부학적인 기술을 처음한 이후 1862년 Ecker가 부검 소견을 통해 환상췌장이라 명명하

였으며, 1905년 Vidal에 의해 위-공장문합술이 성공적으로 수행되었다. Ravitch 와 Woods등에 의하면 이 질환의 발생 빈도는 20,000 부검에 중 3예에서 발생했다고 보고하였고, Theodorides는 24519의 수술예 중 3예에서 발생했다고 보고하였다. 한편 최근 ERCP 문헌에서는 150 - 200예 중 1예의 빈도를 보고하고 있다<sup>1</sup>.

환상췌장은 조직학적으로 정상적인 췌장조직이 십이지장 하행부를 환상으로 둘러싸서 십이지장의 폐쇄를 유발하게 된다. 정상적인 췌장의 발생 과정을 보면 태생 3주에 원십이지장에서 복측원기가 나타나며 태생 4주에 배측원기가 나타난다. 2개의 복측원기 중 좌측은 퇴화되고 우측복측원기가 십이지장 주위를 회전하여 배측원기와 태생 6-7주에 융합된다. 배측원기는 췌장의 체부와 미부를 형성하고 복측원기는 췌장 두부의 하부와 구상돌기를 형성하게 되며 Wirsung관을 포함한다<sup>1,9</sup>.

환상췌장의 발생에 대하여는 여러 가지 가설이 있는데 Lecco에 따르면 우측복측원기가 십이지장 벽에 고정된 상태로 회전하여 환상을 이루게 된다고 한 반면, Tiecken은 십이지장을 둘러싸는 우측복측원기의 단순 비대에 의한다고 주장했으며, 기타 좌측복측원기의 지속, 십이지장의 이소성췌장조직의 정상췌장조직과의 융합 또는 정상적인 췌장 조직 발생시 십이지장의 협착설 등<sup>7</sup>이 있다.

Ravitch등은 285예 중 122예는 1세 이전에 증상이 발생하였고 이중 89명은 1주 이내에 증세를 보였다고 보고하였다. 증상은 십이지장 폐쇄의 정도와 관련되어 나타나는데 신생아기에는 대개 급성폐쇄로 인하여 구토, 상복부 팽만, 탈수증, 체중 감소, 황달 등의 소견<sup>10</sup>을 보일 수 있고, 토물은 대부분(90% 이상) 담즙을 함유하고 있으며 폐쇄의 위치에 따라 달라질 수도 있다<sup>17</sup>. 완전폐쇄시에는 분만 전 양수과다증이 나타날 수 있고 불완전 폐쇄시에는 보다 다양한 증상으로 나타날 수 있는데 간헐적인 증상으로 인하여 분만이완중, 수유장애, 성장장애 또는 우유 알레르기로 잘못 해석될 수도 있으며, 소아에서는 심인성 복통 또는 구토로 잘못 해석될 수도 있다<sup>10</sup>. 성인에서는 증세의 대부분이 무증상으로 수술이나 부검시 우연히 진단되는 경우가 많으나 대개 30-50세에 증상이 나타나고, 주증상으로는

소화성 궤양, 궤장염, 십이지장 폐쇄등으로 인한 복통 및 구토가 해당된다. 소화성 궤양의 발생률은 25-43% 이며 궤장염은 13-24% 정도로 보고되고 있다. 일반적으로 궤장염의 원인은 궤관폐쇄에 의해 이차적으로 오는 것으로 생각되며, 궤장염의 위치는 주로 환상부 및 궤장두부에 국한되어진다고 한다. 십이지장 폐쇄는 환상채장에 의한 십이지장의 협착 또는 급성궤장염으로 인한 환상부의 부종 때문인 것으로 생각되고 있다.<sup>12</sup> 신생아에서 환상 궤장에 의한 십이지장 폐쇄시 단순복부촬영상 쌍기포 소견을 보이고, 상부위장관촬영상 상부 십이지장의 확장 및 십이지장 폐쇄 소견을 보이며 복부 초음파가 진단에 도움을 줄 수도 있다. 단순복부촬영상 전형적인 쌍기포 소견이 나타나면 반드시 상하부위장관촬영이 필요하지는 않으나 십이지장 폐쇄를 일으킬 수 있는 원인을 감별하는데 도움을 줄 수 있다<sup>1</sup>. 신생아에서 감별해야 될 질환들로는 외인성 십이지장 폐쇄, 상하부위장관폐쇄, 중장축염전, 십이지장의 내인성 폐쇄를 유발하는 폐쇄증, 막형폐쇄, 협착증, 게실증 등이 있으며, 이들 모두 응급을 요하는 질환들로서 감별을 위해 수술이 지연되어서는 안될 것으로 되어있다<sup>13</sup>. 성인에서는 상복부 통증에 대한 ERCP 및 CT의 빈번한 사용으로 진단이 늘어가고 있다<sup>12</sup>.

Merill 과 Raffensperger<sup>10</sup>의 보고에 따르면 이 질환으로 진단된 신생아의 75%에서 다운 증후군, 소화관 회전이상, 선천적 심장이상, 기관식도루, 쇄항 등의 선천성 기형이 동반된다고 하며 기타 잠복 고환, 맥켈씨 게실증 등도 동반된다고 보고하고 있다. 수술은 증상이 있을 경우에만 시행하며 신생아에서는 술전 구토로 인한 전해질 이상, 탈수증 및 대사성 알칼리증 등을 교정한 뒤에 수술을 시행하여야 한다. 수술방법은 역사적으로 두가지가 있는데 환상채장의 환 일부를 절개하는 방식으로 이는 궤장루, 궤장염, 잔류폐쇄등의 단점<sup>18-20</sup>이 있어 현재는 시행하지 않게 되었고, 다른 하나는 측도 형성술이다. 측도 형성술은 문합방법에 따라 위-공장문합술, 십이지장-공장문합술, 십이지장-십이지장문합술이 있는데, 위-공장문합술은 문합부 궤양 및 구심성 궤제 증후군 및 술후 덤핑증후군등의 염려가 있으며 심한 소화성 궤양으로 위 절제를 시행할 경우

라면 시행할 수 있다. 그러나 대부분의 학자들은 위-공장문합술보다는 십이지장-공장문합술이나 십이지장-십이지장문합술을 가장 좋은 술식으로 주장<sup>9,10</sup>하고 있다. 특히 최근에는 맹관없이 최단문합술을 시행하려는 의도에서 십이지장-십이지장문합술을 시도하고 있으며 좋은 결과를 보고<sup>21,22</sup>하고 있기도 하다.

본 증례의 환아는 술후 3일째 기계식 호흡요법을 중지하고, 술후 5일째 태변의 통과가 있었으며 L-tube를 제거하였다. 술후 6일째 수유를 시작하였으나 담즙성 구토가 심하여 술후 9일째 상부위장관 촬영을 시행하였는데 문합부의 협착 및 지연배출 소견을 보였다. 술후 12일째 신생아 패혈증의 증상이 나타나 다시 기계식 호흡요법을 시작하였고, 술후 20일째 혈액배양검사상 *E. cloacae*가 자란 것으로 보고되었다. 술후 14일째 위액 및 기관튜브의 배양검사를 보냈는데 술후 19일째 *C. albicans*가 자란 것으로 보고되었다. 패혈증이 나타나기 수일 전부터 호흡음이 거칠어졌고, 흉부 엑스선 사진상 폐렴이 의심되었으며 술후 12일째 인공환기요법을 위해 기관삽관술을 시행하였을때 상당히 많은 기관 분비물이 흡인된 것으로 보아 호흡기 계통의 감염에 의해 패혈증이 발생한 것으로 추정된다. 또한 문합부 이상으로 인한 장기간의 금식으로 말미암아 말초성 고농도 영양수액요법을 시행함으로 인하여 전신적 캔디다증이 발병한 것으로 사료된다. 저자들에 따라서는 십이지장 폐쇄의 측도형성술시 문합부에서 발생 가능한 합병증을 감소시키기 위하여 위루술 및 *transanastomotic tube*를 설치하기도 한다.

수술후 높은 사망율을 보이는 주원인은 동반 기형에 기인하며 보통 다발성의 동반기형이 있는 신생아에서 폐합병증으로 인해 사망에 이르게 된다고 한다.

## 결 론

환상채장은 십이지장 폐쇄를 일으키는 보기 드문 선천적 기형으로, 생후 2일된 신생아에서 상기 병으로 진단되어 십이지장-공장문합술 후 신생아 패혈증 및 전신적 캔디다증이 발생하였던 예를 치험

하여 문헌 고찰과 함께 보고한다.

## 참 고 문 헌

1. Moody FG, Potts FR III: Congenital anomalies of the pancreas, in Trede M, Carter DC (eds): Surgery of the pancreas, chapter 34. New York, N.Y., Churchill Livingstone, 1993, Pp369-379
2. 김우기, 최국진, 민병철: 소아의 환상 췌장 3예 보고. 대한외과학회지 15:763-767, 1973
3. 김우기, 민병철: 소아의 환상 췌장. 대한외과학회지 13:394-398, 1971
4. 최정연: 장관 변위회전을 동반한 윤상췌장 2예 보고. 인간과학 7:825-828, 1983
5. 김동욱, 이상택, 김수용, 이정권, 권영대: Annular pancreas 1예. 소아과 29:1147-1151, 1986
6. 권오성, 전용진, 정근상, 손종하: 환상췌장 증례보고. 대한외과학회지 24:1341-1346, 1982
7. Baggott BB, Long WB: Annular pancreas as a cause of extrahepatic biliary obstruction. Am J Gastroenterol 86:224-226, 1991
8. Kiernan PD, ReMine SG, Kiernan PC, et al: Annular pancreas. Arch Surg 115:46-50, 1980
9. Quinlan RM: Anatomy and embryology of the pancreas, in Zuidema GD(ed): Shackelford's surgery of the alimentary tract(ed 4), vol III, chapter 1. Philadelphia, PA, WB Saunders, 1996, Pp3-17
10. Merrill JR, Raffensperger JG: Pediatric annular pancreas ; Twenty years' experience. J Pediatr Surg 11:921-925, 1976
11. Thomford NR, Knight PR, Pace WG: Annular pancreas in adult ; Selection of operation. Ann Surg 176:159-162, 1972
12. Yasuaki Itoh, Tetsuya Hada, Akira Terano, Yuji Itai, Takashi Harada: Pancreatitis in the annulus of annular pancreas demonstrated by the combined use of computed tomography and ERCP. Am J Gastroenterol 84:961-964, 1989
13. Boyden EA, Cope JG, Bill AH Jr: Anatomy and Embryology of congenital intrinsic obstruction of duodenum. Am J Surg 114:190-202, 1967
14. Fonkalsrud EW, DeLorimier AA, Hays DM: Congenital atresia and stenosis of the duodenum. Pediatrics 43:79-83, 1969
15. Jona JZ, Belin RP: Duodenal anomalies and the ampulla of Vater. Surg Gynecol Obstet 143:565-569, 1976
16. Drey NW: Symptomatic annular pancreas in the adult. Ann Intern Med 46:750-772, 1957
17. Jackson JM: Annular pancreas and duodenal obstruction in the neonate. Arch Surg 87:379-383, 1963
18. Hyden WH: The true nature of annular pancreas. Ann Surg 157:71-77, 1963
19. Lloyd-Jones W, Mountain JC, Warren KW: Annular pancreas in the adult. Ann Surg 176:163, 1972
20. Whelan TJ Jr, Hamilton GB: Annular pancreas. Ann Surg 146:252-262, 1957
21. Feuchtwanger MM, Weiss Y: Side-to-side duodenoduodenostomy for obstructing annular pancreas in the newborn. J Pediatr Surg 3:398-401, 1968
22. Wayne ER, Burrington JD: Extrinsic duodenal obstruction in children. Surg Gynecol Obstet 136:87-91, 1973
23. Chevillotte G, Sahel J, Raillat A, Sarles H: Annular pancreas ; Report of one case associated with acute pancreatitis and diagnosed by endoscopic retrograde pancreatography. Dig Dis Sci 29:75-77, 1984