

방어와 굴 생식 후 발생한 장 폐색을 동반한 호산구성 위장염 1예

김준환, 장영우, 심정우, 유종욱, 이상민, 강신명, 이상표

가천대학교 길병원 내과

Eosinophilic gastroenteritis with intestinal obstruction after ingesting raw yellow tail fish and oyster

Joonhwan Kim, Youngwoo Jang, Jungwoo Shim, Jongwook Yu, Sangmin Lee, Shinmyung Kang, Sangpyo Lee

Department of Internal Medicine, Gachon University Gil Medical Center, Incheon, Korea

Eosinophilic gastroenteritis is a rare disease in which the symptoms are associated with eosinophilic infiltration in various layers of the gastrointestinal tract. A 56-year-old man complained of severe abdominal pain after eating yellow tail fish and oyster. There was no peripheral blood eosinophilia in the initial laboratory test. Abdominal computed tomography demonstrated circumferential wall thickening and dilatation of small intestine with ascites. An emergency laparotomy accompanied by segmental resection of the ileum and end-to-end anastomosis was performed. Histologically, there was a dense infiltration of eosinophils throughout the entire layers of ileal wall, through which this case could be diagnosed as eosinophilic enteritis. We did not prescribe systemic glucocorticosteroid, but asked him to avoid fish and oyster. He did not complain of recurrent gastrointestinal symptoms anymore after discharge. This is the case of eosinophilic gastroenteritis with intestinal obstruction requiring emergency surgery, which was developed or aggravated after ingestion of yellow tail fish and oyster that were suspected to be culprit foods. In patients with eosinophilic gastroenteritis, foods which are related to this abnormal condition should be identified and avoided to control this disease and prevent from aggravation or flare-up. (*Allergy Asthma Respir Dis* 2016;4:382-385)

Keywords: Eosinophilic gastroenteritis, Food allergy, Intestinal obstruction

서 론

호산구성 위장염은 위장관 내 호산구 침윤 및 염증을 동반하는 드문 질환으로 1937년 Kaijser에 의해서 처음 보고 되었으며, 위장관 어디에서나 나타날 수 있고 점막부터 장막하 층까지 여러 층에 걸쳐 호산구 침윤이 발생하는 것으로 알려져 있다.^{1,2}

발생 기전과 관련해서는 주로 특발성이 많으나, 다수의 환자에서 식품 특이 면역글로불린 E (food-specific IgE)의 혈청 농도가 증가한 것이 관찰되고 식품 항원에 대한 피부단자시험에서 양성 소견을 보여 식품과의 연관성이 있을 것으로 보이는 점, 그리고 식품 제거 요법(food elimination)이 효과적이었다고 보고한 증례들을 고려할

때, 호산구성 위장염과 식품과의 연관성에 대해서는 더 많은 연구가 필요하다.³

저자들은 원인으로 생각되는 식품을 섭취 후 소장 폐색으로 인한 복통으로 내원한 환자에게 응급 소장 절제술을 시행하였는데, 수술 후 조직검사에서 소장 전층에 호산구 침윤이 관찰된 호산구성 위장염을 진단하게 되어 그 증례를 보고하고자 한다.

증 례

환자: 56세, 남자

주소: 내원 4일 전부터 지속된 복통

Correspondence to: Sang Min Lee  <http://orcid.org/0000-0002-9568-2096>
Division of Pulmonology and Allergy, Department of Internal Medicine, Gachon University, Gil Medical Center, 21 Namdong-daero 774 beon-gil, Namdong-gu, Incheon 21565, Korea
Tel: +82-32-460-2634, Fax: +82-32-469-4320, E-mail: sangminlee77@naver.com
Received: April 21, 2016 Revised: June 10, 2016 Accepted: June 13, 2016

© 2016 The Korean Academy of Pediatric Allergy and Respiratory Disease
The Korean Academy of Asthma, Allergy and Clinical Immunology
This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>).

현병력: 평소에 복부 불편감이나 복통 등 증상이 없고 병원 진료를 받은 적 없이 건강하던 환자는 내원 4일 전 방어와 굴을 생식한 후 내원 3일 전 처음 복통이 발생하였고, 2일 전부터 대변을 보지 못하면서 응급실을 내원하였다.

과거력: 당뇨와 고혈압이 있었으며, 1년 전 건강검진상의 위대장 내시경에서 특이 소견은 없었다. 또한, 내원 1년 전 간 천엽 복용 후 두드러기가 발생한 적이 있었다.

가족력: 특이 사항 없음

활력징후: 혈압 160/100, 심박 수 분당 72회, 호흡 수 분당 22회, 체온 36.5°C

신체검사: 환자의 의식은 명료하였으나 급성병색을 보였다. 흉부 진찰에서 심음과 호흡음은 정상이었으며 복부 진찰에서 복부는 팽대되어 있었고 장음이 증가 되었으며 복부 전반에 중증도의 압통이 있었으나 반사통은 없었다.

검사 소견: 혈액검사에서 백혈구 $6200/\text{mm}^3$ (중성구 74.2%, 림프구 18.5%, 호산구 1%), 혈색소 11.3 g/dL, 혈소판 $20,000/\text{mm}^3$ 이었고, C-반응단백, 간기능검사, 신기능검사는 모두 정상 범위이었다. 흉부 X선 검사에서 특이 소견은 없었다. 복부 X선 검사에서 소장 이 늘어나 있었고 다발성 기수위(air fluid level)와 겹사다리 증후(step ladder sign)가 관찰되었으며(Fig. 1), 복부 전산화 단층촬영상 소장 하부의 비후와 협착이 관찰되었고 소장이 전반적으로 늘어난 소견이 관찰되었다(Fig. 2).

임상 경과: 입원 이후에도 환자는 가스 배출이 지속적으로 되지 않고 복통이 호전 없이 악화되는 양상을 보여 내원 1일 후 응급 수술을 시행하였다. 수술 시 회장맹장팽대(ileocecal bulb) 90 cm 상방에서 장벽 비후가 있으면서 부분적인 폐쇄 및 근위부 소장의 팽

창 소견이 관찰되어 소장 부분 절제술을 시행하였다. 절제된 장벽 비후 부위의 조직학적 검사상 장벽 전층에 걸쳐 호산구 침윤($200/\text{high power field}$)이 저명하여 호산구성 장염에 합당하였다(Fig. 3). 내원 10일 후 시행한 혈액검사상 말초혈액 총 호산구 수는 $620/\text{mm}^3$, 호산구 양이온 단백질 88 ng/mL, 혈청 면역글로불린 E의 농도는 622.41 IU/mL였고 분변 기생충검사에서 음성 소견이었으며, 회충, 폐흡충, 간흡충, 고래회충, 유구낭미충, 개회충에 대한 특이 면역글로블린 G는 음성이었다. 수술 후 장 폐색 및 복통 호전되어 퇴원하였고, 퇴원 시 환자에게 장 폐색의 원인 음식으로 보이는 방



Fig. 2. Abdominopelvic computed tomography scans showed circumferential wall thickening and dilatation of small intestine.



Fig. 1. Abdominal X-ray showed multiple air-fluid level in the small intestine.

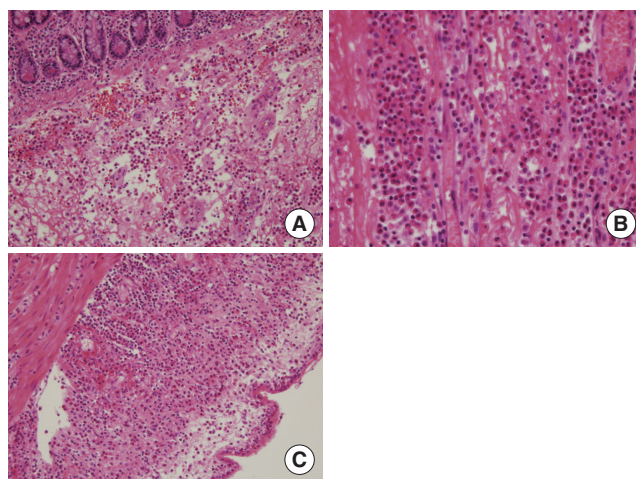


Fig. 3. Histopathologic examination yielded dense infiltration of eosinophils ($200/\text{high power field}$) throughout entire layers of ileum. (A) Mucosal and submucosal layer (H&E, $\times 200$), (B) muscular layer (H&E, $\times 400$), and (C) serosal and subserosal layer (H&E, $\times 400$).

어와 굴을 섭취하지 않도록 교육하였다. 현재까지 7년간의 경과 관찰 중에는 환자에게 특이 증상 혹은 징후가 관찰되지 않았다.

고 찰

호산구성 위장염은 호산구 증가증의 원인이 될 수 있는 약물, 기생충 감염, 종양 등 다른 요인이 없는 상태에서 위장관에 호산구 침윤이 발생하는 질환으로 정의할 수 있다.¹⁴ 호산구성 위장염은 10만 명당 28명의 유병률을 보이는 드문 질환으로 주로 30-50대에 발생하며 남성에서 더 많이 나타나는 것으로 보고되고 있다.^{5,6}

호산구성 위장염의 발병기전은 명확하게 밝혀져 있지는 않으나 호산구의 침윤과 함께 호산구로부터 유리된 호산구 주염기 단백질(major basic protein)에 의한 위장관 조직의 손상과 과사가 주요 기전일 것으로 여겨지고 있다.⁷ 또한, 호산구성 염증과 밀접하게 연관된 Th2 림프구와 그 관련 사이토카인인 interleukin (IL)-4, IL-5, IL-13, 그리고 비만 세포도 발병 및 증상 발현에 관여하는 것으로 생각한다.³

호산구성 위장염의 정형화된 진단 기준은 확립되어 있지 않으나 Talley 등의 기준에 따르면, (1) 소화기계의 증상이 있고, (2) 식도부터 직장 사이의 조직검사에서 호산구 침윤 소견 혹은 전형적인 영상 소견과 함께 말초혈액 호산구가 증가되어 있으며, (3) 기생충 감염 및 기타 위장관 외의 질환이 동반되지 않은 경우로 정의하고 있다. 말초혈액 내 호산구 증가증이 동반되는 경우가 많으나, 20% 정도의 환자에서는 호산구가 정상 범위로 나타나, 확진을 위해서는 조직검사를 통해 위장벽의 호산구 침윤을 입증해야 한다.^{8,9} 최근 연구에 따르면 조직검사에서 호산구 수가 30/high power field 이상인 경우 유의한 호산구 침윤이 있는 것으로 보인다.¹⁰ 이러한 호산구 침윤은 위장관의 다양한 위치에 걸쳐 발생할 수 있으나 위와 십이지장이 가장 호발하는 부위로 알려져 있다.¹¹⁻¹³

호산구성 위장염은 호산구 침윤이 발생하는 층에 따라 점막층, 근육층, 장막하층으로 나눌 수 있고, 각각 57.5%, 30%, 12.5% 정도의 비율을 보이는데, 때로는 위장 벽의 여러 층에 걸쳐 호산구 침윤이 발생할 수도 있으며 침범한 층에 따라 임상 증상이 다르게 나타난다.¹ 가장 흔한 점막층 침윤의 경우 점막 염증으로 인한 복통, 설사, 출혈 등을 주로 호소하게 되며 근육층 침범의 경우, 장 폐색 증상을 호소하게 된다. 장막하층에 발생하는 경우에는 호산구가 우세한 복수로 인한 복부 팽만감 및 복부 불편감, 복통, 그리고 말초혈액의 호산구 증가증이 나타나게 된다.¹³⁻¹⁶

알레르기 질환과의 연관성에 대해서는 이전 연구 결과 50% 정도의 호산구성 위장염 환자에서 알레르기 질환의 과거력이 있는 것으로 보고되었으며 특히 식품 알레르기의 경우 점막층이 침범된 환자에서 주로 나타났다.¹ 또한, 호산구성 위장염 환자 중 다수에서 혈청 총 면역글로불린 E와 식품 특이 면역글로불린 E가 증가되어

있고, 점막층 침범이 주가 되는 환자의 경우 식품 제거 요법만으로 호전되는 사례가 보고된 점으로 식품알레르기와의 연관성을 추측할 수 있었다.¹¹ 대부분 식품항원에 대한 알레르기 피부반응검사도 양성을 나타냈으나 전형적인 즉시형 과민반응은 없었고, 대신 지연형 식품 과민반응을 보였다.³ 원인으로 의심되는 식품이 증상을 유발하는지 확인하기 위해서 해당 식품에 대해서 경구유발검사를 시행하거나 환자에게 음식 일지를 적어오게 하여 해당 섭취 여부에 따라서 증상이 유발되는지를 평가해 볼 수 있으나, 즉시형이 아닌 지연형 과민반응인 경우에는 시간적인 선후 관계를 평가하는 데 어려움이 있고, 본 증례와 같이 심한 장 폐색을 유발하는 경우에는 이러한 평가 자체가 환자에게 위협할 수 있으므로 시행하기가 어렵다. 결국, 호산구성 위장염과 식품알레르기의 연관성에 대해서는 충분한 연구가 더 필요한 실정이다.

호산구성 위장염의 주된 치료는 부신피질호르몬제의 투여이며 좋은 치료 반응을 보인다.^{1,17,18} 특히, 장 폐색의 경우에도 스테로이드 치료만으로 호전되기도 한다.¹⁹ 다만 장 천공이나, 급성 장 폐색 등으로 인해 임상 경과가 급격하게 악화되거나 약물 치료에 반응하지 않을 때에는 불가피하게 수술을 하게 되면서 거꾸로 진단되는 경우도 종종 있다.^{13,20} 또한 자연사가 완전히 정립된 것은 아니므로 지속적인 경과 관찰과 함께 원인 물질 규명 및 회피가 적절히 병행되어야 할 것이다.

이번 증례의 환자는 식품알레르기 과거력이 있던 환자로 평소 소화기 증상 및 건강검진 내시경상 소견은 없었으나, 방어와 굴 섭취 후 갑작스러운 장 폐색과 복통을 호소하며 내원하여 응급 소장 절제 수술을 시행하였다. 수술 전 특별한 약물 치료 없이 말초혈액검사상 호산구 증가증은 저명하지 않았으나 절제 부위의 조직검사에서 위장 벽의 전층의 호산구 침윤이 확인되어 호산구성 위장염이 진단되었다. 병력 청취 및 각종 검사 소견에서 기생충 질환, 약물과민반응, 종양 등 다른 질환의 가능성을 배제할 수 있었다.

저자들은 원인으로 의심되는 음식인 방어와 굴이 질환과의 인과 관계가 성립하는지 여부를 좀더 확실하게 규명하기 위해서 환자에게 해당 음식에 대한 피부단자시험과 혈청 특이 IgE 항체 농도 측정을 권유하였으나, 환자는 이를 거부하였다. 또한, 환자의 호산구성 위장염이 장 폐색을 유발할 정도로 심한 형태였기 때문에 식품유발검사를 고려하기도 어려웠고, 방어나 굴이 한국인이 흔히 섭취하는 식품이 아니고 환자에게 이러한 식품을 섭취하지 않도록 권하였기 때문에 음식일지를 기록하게 하는 것도 원인 평가에 있어서 큰 도움이 되지 않았다. 그리고, 이전에 천염을 섭취 후 두드러기가 발생한 식품알레르기의 과거력이 있었지만, 이번 증례에서 호산구성 위장염의 원인으로 의심되는 방어나 굴에 대한 식품알레르기의 과거력은 확인되지 않았다. 따라서, 원인으로 의심되는 식품과 질환과의 인과 관계를 좀더 명확히 규명하지 못했다는 점이 이번 증례가 갖고 있는 한계점이다. 또한 식품알레르기의 경우 점막층 침범

이 수가 되는 것으로 보고되고 있으나, 이번 증례는 장 폐색이 주 증상인 점을 고려할 때 근육층 침범이 우세한 것으로 보여 특발성의 가능성을 완전히 배제하기는 어렵다¹

이러한 한계점에도 불구하고 이번 증례에서 찾을 수 있는 의미는 이전 보고에서와 마찬가지로 호산구성 위장염이 식품 섭취 후 즉시형 과민 반응의 증상 및 징후 없이 지연형 과민 반응의 형태로 발병하였는데, 시간적 선후 관계 상 방어와 굴의 섭취로 인해 호산구성 위장염이 발생하거나 악화된 것으로 보이고, 이러한 원인으로 의심되는 식품을 섭취 후 수일 동안 근육층을 포함하여 소장 전층에 호산구 침윤이 심하게 진행되어 결국 수술적 치료가 필요한 장 폐색이 발생하였다는 점이다. 환자는 수술 후 증상이 회복되어 부신피질호르몬을 투여하지는 않았고 원인으로 의심되는 방어나 굴의 섭취를 제한하면서 특이 증상이나 징후 재발 없이 외래 경과 관찰 중이다.

저자들은 원인으로 의심되는 방어와 굴을 섭취 후 호산구성 위장염이 발생 혹은 악화되어 결국 장 폐색으로 수술한 증례를 경험한 바 있어, 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Talley NJ, Shorter RG, Phillips SF, Zinsmeister AR. Eosinophilic gastroenteritis: a clinicopathological study of patients with disease of the mucosa, muscle layer, and subserosal tissues. *Gut* 1990;31:54-8.
2. Biswas S, Hoo W, Katsoulas N, Munro J, Oke O. Eosinophilic enteritis: a rare cause of abdominal pain. *Int J Colorectal Dis* 2007;22:87-8.
3. Rothenberg ME. Eosinophilic gastrointestinal disorders. In: Adkinson NF Jr, Bochner BS, Burks AW, Busse WW, Holgate ST, Lemanske RF Jr, et al. *Middleton's allergy: principles and practice*. 8th ed. London: Elsevier Health Saunders, 2013:1095-106.
4. Rothenberg ME. Eosinophilic gastrointestinal disorders (EGID). *J Allergy Clin Immunol* 2004;113:11-28.
5. Lucendo AJ, Arias A. Eosinophilic gastroenteritis: an update. *Expert Rev Gastroenterol Hepatol* 2012;6:591-601.
6. Spergel JM, Book WM, Mays E, Song L, Shah SS, Talley NJ, et al. Variation in prevalence, diagnostic criteria, and initial management options for eosinophilic gastrointestinal diseases in the United States. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2011;52:300-6.
7. Frigas E, Gleich GJ. The eosinophil and the pathophysiology of asthma. *J Allergy Clin Immunol* 1986;77:527-37.
8. Yun MY, Cho YU, Park IS, Choi SK, Kim SJ, Shin SH, et al. Eosinophilic gastroenteritis presenting as small bowel obstruction: a case report and review of the literature. *World J Gastroenterol* 2007;13:1758-60.
9. Aguilar-Jiménez J, Jiménez-Ballester MÁ, Valero-Navarro G, Navarro-Martínez MN, Plasencia-Martínez JM, Aguayo-Albasini JL. Eosinophilic gastroenteritis and bowel obstruction. Can surgery be avoided? *Rev Esp Enferm Dig* 2015;107:185-7.
10. Lwin T, Melton SD, Genta RM. Eosinophilic gastritis: histopathological characterization and quantification of the normal gastric eosinophil content. *Mod Pathol* 2011;24:556-63.
11. Chen MJ, Chu CH, Lin SC, Shih SC, Wang TE. Eosinophilic gastroenteritis: clinical experience with 15 patients. *World J Gastroenterol* 2003;9:2813-6.
12. Liacouras CA, Markowitz JE. Eosinophilic esophagitis: a subset of eosinophilic gastroenteritis. *Curr Gastroenterol Rep* 1999;1:253-8.
13. Alexander P, Jacob S, Paul V. Laparoscopy in eosinophilic jejunitis presenting as subacute bowel obstruction: a case report. *Trop Gastroenterol* 2003;24:97-8.
14. Antonini F, Saltarelli P, Frieri G, Latella G. Education and Imaging: gastrointestinal: eosinophilic ascites. *J Gastroenterol Hepatol* 2012;27:1759.
15. Bouhmid A, Lorente Poyatos R, Romero Cara P, Ibáñez Martín JJ, Casado Caballero F, Quintero Fuentes D, et al. Eosinophilic enteritis as a rare cause of ascites. *Gastroenterol Hepatol* 2003;26:480-1.
16. Pineton de Chambrun G, Desreumaux P, Cortot A. Eosinophilic enteritis. *Dig Dis* 2015;33:183-9.
17. Yan BM, Shaffer EA. Primary eosinophilic disorders of the gastrointestinal tract. *Gut* 2009;58:721-32.
18. Khan S. Eosinophilic gastroenteritis. *Best Pract Res Clin Gastroenterol* 2005;19:177-98.
19. Lim KC, Tan HK, Rajnakova A, Venkatesh SK. Eosinophilic gastroenteritis presenting with duodenal obstruction and ascites. *Ann Acad Med Singapore* 2011;40:379-81.
20. Khan S, Orenstein SR. Eosinophilic gastroenteritis. *Gastroenterol Clin North Am* 2008;37:333-48.