

신생아에 발생한 원인 불명의 일시적인 복부 팽만 3 예

최정연 · 윤은실 · 최광해
영남대학교 의과대학 소아과학교실

Transient Abdominal Distension in Neonate

Jung Youn choi, Eun Sil Yun, Kwang Hae Choi

Department of Pediatrics,
College of Medicine, Yeungnam University, Daegu, Korea

—Abstract—

Abdominal distension is not an uncommon symptom in the neonate; it is indistinguishable from Hirschsprung disease by symptoms and X-ray findings. In three patients, severe abdominal distension was found at early infancy and improved with conservative treatment without relapse. The findings were different from those of Hirschsprung disease. Immaturity or poor coordination of peristaltic movement is postulated as the cause. With maturation such problems can normalize. However the pathogenesis remains unclear and further investigation is needed to improve our understanding.

Key Words: Transient, Abdominal distension, Neonate

서 론

신생아기에 복부 팽만은 드물게 발생하는 것은 아니다. 감염이나 신생아괴사성장염, 전해질이상, 선천성갑상선기능저하증, 장이상회전, 선천성거대결장증 등 여러 가지 원인에 의해서 발생할 수 있다. 그러나 선천성 장폐쇄를 일으키는 질환들은 대개 복부 팽만과 함께 담즙성

구토를 동반하는 경우가 많으며, 감염이나 전해질 이상 혹은 선천성갑상선기능저하증 등은 혈액 검사로 감별진단이 가능하다. 그러나 구토나 발열, 성장 장애, 혈액 검사 이상 등 비정상적인 소견이 없이 단순하게 복부 팽만만 있다가 시간이 지나면서 저절로 호전되는 경우가 관찰되는데 이에 대한 국내외적인 연구나 보고가 거의 없어서 이에 대한 경험을 문헌고찰과

함께 보고하고자 한다.

증례 1.

생후 3주 남아가 출생 후부터 약간의 복부 팽만이 있었으나 하루에 3~4회의 대변을 보며 별 다른 증상 없이 지내오다가, 병원에 오기 5 일전부터 복부팽만이 심해져서 개인병원에서 전원되었다. 환이는 만삭아, 2.5 kg, 제왕절개로 출생하였으며, 출생 후 태변은 24시간 이내에 보았다고 하였다. 다운증후군으로 진단받았으며, 심방중격결손이 있었고, 모유 수유를 하고 있었다. 신체검사에서 심한 복부 팽만이 있었으며, 혈액검사에서 전해질 이상은 없었고 갑상선 기능도 정상이었다. 단순복부촬영에서는 장폐쇄를 의심할 정도의 많은 공기음영이 보였다(Fig. 1-A). 바륨관장검사(barium enema)에서 직장과 S-결장의 너비가 직장의 너비보다 더 커서 선천성 거대 결장증이 의심되었다(Fig. 1-B). 그러나 항문직장압력검사(anorectal manometry)에서는 직장항문억제반사(rectoanal inhibitory

reflex)가 양성이어서 서로 상반되는 결과를 보였다(Fig. 1-C). 직장흡인조직검사에서는 신경절세포가 없었으며, acetylcholinesterase 염색은 불분명한 결과를 보였다. 결과를 종합하여 보면 선천성 거대 결장증으로 확진하고 수술적 교정을 하기가 곤란하여, 직장에 튜브를 꽂은 후 감압요법을 시행하였다. 이후 복부 팽만이 많이 호전되어 퇴원하였다. 퇴원 후 더 이상 복부팽만이 없었다.

증례 2

생후 1개월 남아가 출생 후부터 복부팽만이 있었으나 배변장애가 없고, 식욕도 좋아서 집에서 지내다가 예방 접종을 하기위하여 들린 개인병원에서 검사한 단순복부촬영에서 심한 장의 확장 소견이 있어서 전원되었다. 환이는 2.9 kg, 만삭아고 정상분만하였으며, 출생 후 24시간 이내에 태변을 보았다. 환이는 모유수유를 하고 있었으며, 신체검사에서 심한 복부 팽만이 있었다. 혈액 검사에서 전해질과 갑상선

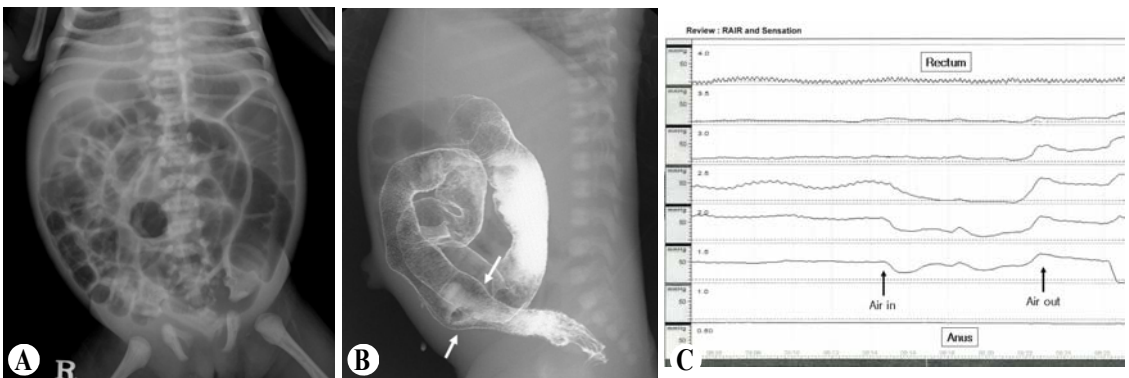


Fig. 1. Diffuse paralytic ileus pattern is seen. Distal rectal gas is not demonstrated (A), About total 7cm lengthed luminal narrowing with serrated mucosa is seen from anal verge to rectosigmoid junction (arrow). Proximal sigmoid colon is relatively dilated compared with rectum and rectosigmoid index is reversed (B). When the balloon was dilated, intra-anal pressure was decreased. This mean that rectoanal inhibitory reflex was positive (C).

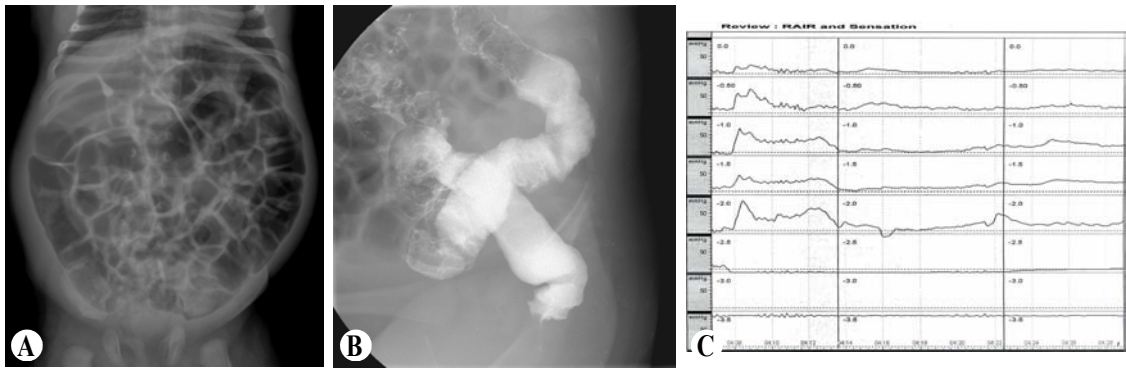


Fig. 2. Diffuse paralytic ileus pattern is seen (A). Transitional zone is not seen (B). Rectoanal inhibitory reflex is seen (C).

기능은 정상이었다. 단순복부촬영에서 증례 1과 유사한 소견을 보였다(Fig. 2-A). 바륨관장 검사에서는 선천성 거대 결장증을 의심할만한 소견은 없었다(Fig. 2-B). 직장흡인조직검사에서 acetylcholinesterase는 음성이었으나 신경 절세포를 보기에는 부적합한 표본이어서 신경 절세포의 유무를 판단하지 못 하였다. 항문직장압력검사에서 직장항문억제반사가 양성이었다(Fig. 2-C). 결과를 종합하여 판단하면 선천성 거대 결장증의 가능성이 낮아서 직장에 튜브를 꽂은 후 감압 요법을 하였으며 이후 복

부 팽만이 현저히 감소되어 퇴원하였다. 퇴원 후 더 이상 심한 복부 팽만이 없었다.

증례 3

생후 1개월 남아가 출생 후부터 복부팽만이 있어서 생후 3주경에 다른 병원에서 시행한 바륨관장검사에서 이행부위(transitional zone)가 보여서 선천성 거대 결장증 의심 하에 전원되었다. 환아는 3.2 kg, 만삭아로 정상분만하였으며, 태변의 배출에 대한 정확한 정보는 얻을

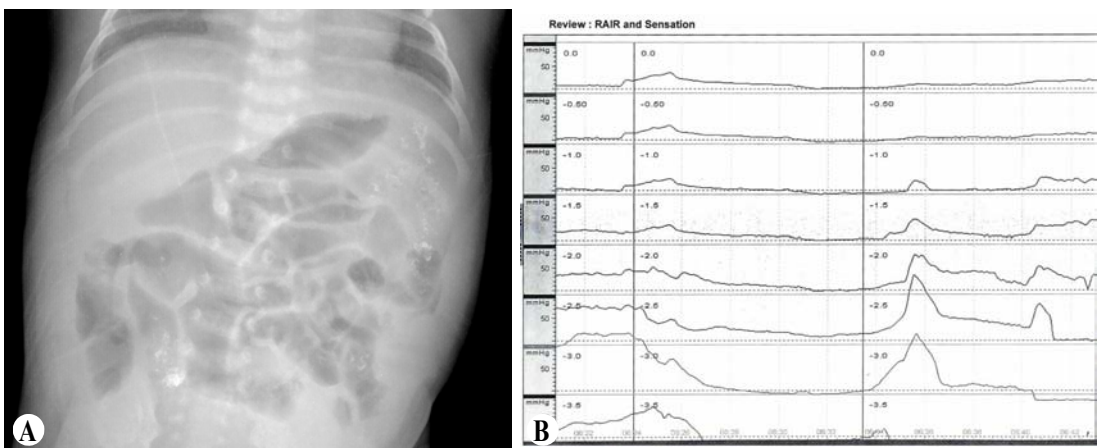


Fig. 3. Severe paralytic ileus pattern is not seen because of previous barium enema (A). Rectoanal inhibitory reflex is seen (B).

수 없었고, 모유수유를 하고 있었다. 신체검사에서는 심한 복부 팽만이 없었으며 이는 다른 병원에서 바륨관장을 하면서 감압이 되었던 것으로 생각되었으며(Fig. 3-A), 혈액 검사에서 전해질 이상이나 갑상선 기능 검사에 이상은 없었다. 직장흡인조직검사에서 신경절세포가 있었고, acetylcholinesterase는 음성이었다. 항문직장압력검사에서도 직장항문억제반사가 양성이었다(Fig. 3-B). 결과를 종합하여 선천성 거대 결장증의 가능성이 낮은 것으로 판단하여 퇴원하였다. 퇴원 후 약간의 복부 팽만은 지속되었으나 하루에 1번씩 대변을 보았으며 퇴원 후 약 3개월까지 한 번씩 변을 보기 힘들어 하고 복부팽만이 있어서 관장을 해주었으나 그 이후에는 정상적이 배변으로 더 이상의 복부 팽만은 없었다.

고 찰

신생아기에 선천성거대결장증과 유사한 증상을 보이는 경우가 드물지 않으며, 대개 대증요법으로 호전된다. 그러나 이에 대한 보고나 연구가 드문 것은 아마도 선천성거대결장증이 아니라고 판단이 되면 수술의 필요성이 없기 때문에 관심을 가지지 않는 것으로 생각된다. 선천성거대결장증은 1888년 심한 만성 변비와 복부 팽만으로 사망한 2명을 처음으로 보고하였으며,¹⁾ 1940년대에 신경절세포가 없어서 발생하는 것으로 밝혀졌고,²⁾ 그 이후 직장흡인으로 얻은 조직에서 acetylcholinesterase 염색으로 더 정확한 진단을 할 수 있게 되었다.³⁾ 그러므로 선천성거대결장증과 다른 질환을 감별하기 위해서 주로 바륨관장검사, 직장흡인조직검사, acetylcholinesterase의 염색을 시행한다. 본 증

례에서도 선천성거대결장을 감별하기 위해 바륨관장검사, 직장흡인조직검사에서 신경절세포의 유무와 acetylcholinesterase 염색과 항문직장압력검사를 하였다. 바륨관장검사에서 이행부위는 신생아시기에는 나타나지 않을 수가 있고, 직장흡인조직검사는 항문의 dentate line 약 2~3 cm에서는 정상적으로 신경절세포가 적어 이 부위를 생검할 경우 신경절세포가 없을 수도 있으며, 무신경절 부위가 아주 짧은 경우 무신경절 부위의 상방에서 생검을 하게 되면 신경절세포가 나올 수 있고 그리고 점막하층의 조직까지 생검이 되어야 하기 때문에 정확한 부위와 적합한 조직을 얻어야 올바른 진단을 할 수 있다. 그러므로 한가지 검사로 선천성거대결장증의 진단을 하기보다는 여러 가지 검사와 임상적 경과를 보고 진단하여야 한다. 본 3증례 모두에서 항문직장압력검사에서 직장항문억제 반사가 있었으나, 바륨관장검사, 직장흡인조직검사에서는 서로 상반되는 결과가 나왔다. 그러나 임상적으로 환아들의 질병 경과를 볼 때 선천성거대결장증의 경과와 달리 선천성거대결장증일 가능성은 없어 보인다.

신경절세포가 있으면서 복부 팽만을 일으키는 질환으로는 장신경형성장애(neuronal intestinal dysplasia)가 있다. 장신경형성장애는 1971년 Meier-Ruge에 의해서 처음 보고⁴⁾ 되었으며, 특징적인 조직학적 소견은 신경절이 점막하신경층에 신경절세포가 7개 이상을 포함하는 거대 신경절이 있거나, 비정상적인 장소에 신경절세포가 있거나, acetylcholinesterase의 활성도가 증가되어 있다.^{5, 6)} 이 질환 역시 선천성거대결장증과 유사한 증상을 나타낸다. 그러나 선천성거대결장증과는 달리 신경절세포에 이상이 있는 것이 다르므로 조직 검사를 통해 감별

할 수가 있다. 본 증례에서는 1례에서는 신경절세포가 없었고, 1례에서는 부적절한 조직으로 신경절세포를 찾을 수 없었으며, 1례에서만 신경절세포가 발견되어 감별이 어려웠다. 그러나 장신경형성장애는 신경절세포의 이상으로 배변장애가 있는 경우 간헐적인 관장이나 항문내괄약근육 절제술을 하여 치료를 하며 평균 1년 정도 걸린다고 보고하였다.⁷⁾ 조직 검사에서 신경절세포의 이상 유무를 확인하지 못하여 단정하기는 어려울 것으로 생각되지만 임상증상의 호전 기간이 장신경형성장애보다 훨씬 더 빨리 호전되었고, 장신경형성장애에서는 직장항문역제 반사가 정상적으로 나타나는 경우가 약 24%이지만⁸⁾ 본 증례에서는 모두 직장항문역제 반사가 나타나는 것으로 보아 다른 질환군으로 추정된다.

신생아에서 일시적으로 비기질적 장폐쇄증에 대해 보고한 연구가 있다.⁹⁾ 선천성거대결장증과 유사한 증상을 나타낸 51명을 대상으로 연구하였으며 대증요법으로 평균 5개월(2개월에서 14개월)에 증상이 호전되었으며, 항문직장압력검사에서 전부 직장항문역제 반사가 나타났고, 직장흡인조직검사서 비정상적인 신경절세포는 관찰되지 않았다고 한다. 그 원인으로는 장운동의 미숙으로 인해 발생하며 나이가 들면서 성숙하여 정상으로 된다고 추측하였다. 본 증례들도 전부 항문직장압력검사서 직장항문역제반사가 나타났으며, 장신경형성장애보다 빨리 증상이 호전되는 것으로 보아 이 질환군에 속 할 것으로 생각된다. 아직까지 이들에 대한 연구가 미미한 상태이므로 앞으로 지속적인 연구가 필요할 것으로 생각된다.

참 고 문 헌

1. Hirschsprung H. Stuhlträchtigkeit neugeborener infolge von dilatation und hypertrophic des colons. Jb Kinderheilkd 1888;27:1.
2. Whitehouse F, Kernohan J. Myenteric plexuses in congenital megacolon; study of 11 cases. Arch Intern Med 1948;82:75.
3. Meier-Ruge W, Lutterbeck PM, Herzog B, Morger R, Moser R, Scharli A. Acetylcholinesterase activity in suction biopsies of the rectum in the diagnosis of Hirschsprung's disease. J Pediatr Surg 1972 Feb;7(1):11-7.
4. Meier-Ruge W. Uber ein Erkrankungsbild des colon mit Hirschsprung-Symptomatik. Vehr Dtsch Ges Pathol 1971;55:506-10.
5. Scharli AF: Neuronal intestinal dysplasia. Pediatric Surg Int 1992 Jan;7(1):2-7.
6. Koletzko S, Jesch I, Faus-Kebetaler T, Briner J, Meier-Ruge W, Muntefering H, et al. Rectal biopsy for diagnosis of intestinal neuronal dysplasia in children: a prospective multicentre study on interobserver variation and clinical outcome. Gut 1999 Jun;44(6): 853-61.
7. Gillick J, Tazawa H, Puri P. Intestinal neuronal dysplasia: results of treatment in 33 patients. J Pediatr Surg 2001 May;36(5):777-9.
8. Montedonico S, Acevedo S, Fadda B. Clinical aspects of intestinal neuronal dysplasia. J Pediatr Surg 2002 Dec;37(12):1772-4.
9. Yamauchi K, Kubota A, Usui N, Yonekura T, Kosumi T, Nogami T, et al. Benign transient non-organic ileus of neonates. Eur J Pediatr Surg 2002 Jun;12(3):168-74.