

이소성 췌장과 위점막을 가진 멕켈 계실에 의한 장중첩증 1예

충남대학교 의과대학 소아과학교실, *일반외과학교실, † 해부병리학교실

김미진 · 김재영 · 설지영* · 강대영†

A Case of Intussusception Caused by Meckel's Diverticulum with Heterotopic Pancreatic and Gastric Tissues

Mi Jin Kim, M.D., Jae Young Kim, M.D., Ji Young Sul, M.D.* and Dae Young Kang, M.D.†

Departments of Pediatrics, *Surgery and † Pathology, College of Medicine, Chungnam National University, Daejeon, Korea

Intussusception is a frequent cause of intestinal obstruction in early childhood and most are idiopathic in origin. In a minority of cases a definite pathological lead point is identified by imaging studying or during surgery. As the pathologic lead point of intussusception, Meckel's diverticulum is the most common lesion. In symptomatic patients, 40~60% of Meckel's diverticulum contain ectopic tissue, with gastric mucosa being far the most common type. A few Meckel's diverticulum contain pancreatic tissue. Combined heterotopic pancreatic and gastric tissues in the Meckel's diverticulum especially causing intussusception is extremely rare. We report the case of 5-year-old girl with an intussusception caused by Meckel's diverticulum containing both heterotopic gastric and pancreatic tissues. (**Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr 2006; 9: 75~79**)

Key Words: Intussusception, Meckel's diverticulum, Heterotopic gastric and pancreatic tissues

서 론

장중첩증은 소아에서 장폐쇄를 일으키는 가장 흔한 질환으로 뚜렷한 원인이 발견되지 않는 특발성이 대부분이나, 1.5~12%에서는 멕켈 계실, 림프종, 용종, 중복낭, 헤노크-쉬라인 자반증에 의한 장벽내 혈

중, 혈관 기형, 이소성 조직 등의 선두가 발견된다¹⁻³⁾. 이중 멕켈 계실은 비특발성 장중첩증의 가장 흔한 선두이며, 소아에서 증상을 유발하는 멕켈 계실의 약 60% 정도가 이소성 점막이나 췌장 조직을 가지고 있다²⁻⁵⁾. 멕켈 계실이 이소성 위와 췌장 조직을 동시에 가지고 있는 경우는 문헌상에서 3% 정도로 보고되어 있으며, 장중첩증을 유발한 경우는 그 보고 예가 매우 드물다. 저자들은 5세 여아에서 장중첩증의 선두로서 이소성 위점막과 췌조직을 동시에 가진 멕켈 계실에 의한 장중첩증 1예를 경험하였기에 보고한다.

접수 : 2006년 1월 31일, 승인 : 2006년 2월 27일
책임저자 : 김재영, 301-721, 대전시 중구 대사동 640
충남대학교병원 소아과학교실
Tel: 042-220-7249, Fax: 042-255-3158
E-mail: jykim9@korea.com

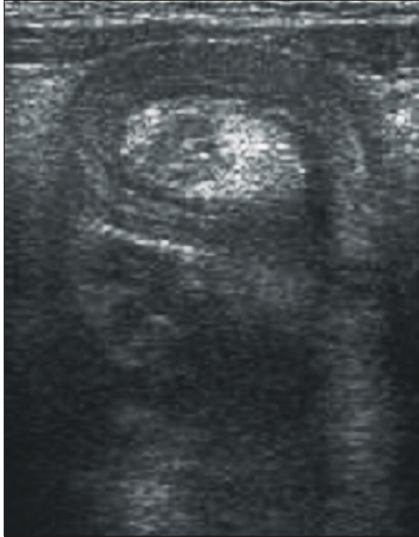


Fig. 1. Ultrasonography shows a doughnut sign indicating intussusception.

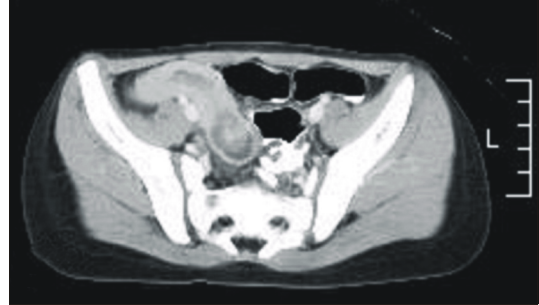


Fig. 2. Abdominal CT shows a mass lesion suspicious leading point in distal ileum.

적혈구 용적치 39.3%, 백혈구 14,020/mm³, 혈소판 309,000/mm³였다. 혈청 생화학 검사에서 총 단백 7.3 g/dL, 알부민 4.8 g/dL, 총 빌리루빈 0.61 mg/dL, AST/ALT 25/15 IU/L였고, 전해질은 나트륨 142 mEq/L, 칼륨 4.0 mEq/L, 염소 107 mEq/L, 칼슘 10.6 mg/dL, 인 3.6 mg/dL, 중탄산염 21.8 mEq/L였다.

방사선 소견: 단순 방사선 복부 사진에서 특이 소견은 없었으며, 복부 초음파 검사에서 소장외의 말단 부위에서 도넛 소견(doughnut sign)이 보였다(Fig. 1). 가스트로그라핀 관장 정복술 시행 후 제2병일에 장중첩증이 다시 발생하여 정복하였으며, 3병일에 세 번째 장중첩증의 증상이 또 발생하여 병적 선두의 확인을 위해 복부 CT 검사를 한 후 정복술을 시행하였다. 복부 CT 검사에서는 우하복부에 장중첩증과 함께 원위 회장 부위에서 1.8×1.5 cm 크기의 종괴가 발견되었다(Fig. 2).

수술소견 및 수술경과: 일반외과로 전과되어 복강경을 시행하였다. 장중첩은 정복된 상태였으며 회맹관에서 90 cm 근위부 회장에 맥켈 게실이 관찰되어 게실 절제술을 시행하였다.

병리 소견: 절제된 게실의 길이는 3.7 cm였으며, 게실의 끝 부위에 2×1.8 cm 크기의 덩이가 함유되어 있었다(Fig. 3A, B). 현미경 소견에서 게실은 위 점막과 함께 게실 내 덩이의 점막 하층에서 다양한 크기의 체도관(duct)과 도 세포(islet cell)가 관찰되었다(Fig. 4A, B).

증 례

환 아: 김○○, 5세, 여자

주 소: 내원 2시간 전부터 시작된 주기적 복통 과거력 및 현병력: 평소 건강하게 지내오던 중 내원일 아침부터 5분 정도의 간격으로 30초~1분간 지속되는 발작적인 복통이 발생하였다. 내원 10개월 전에 장중첩증으로 본원에서 정복술을 받은 적이 있었다.

출생력: 만삭아로 출생체중은 2,500 g으로 제왕절개에 의해 출산되었으며, 출산 시에 특별한 문제는 없었다.

가족력: 특이 사항은 없었다.

신체 검사: 내원 당시 활력징후는 맥박수 분당 121회, 호흡수 분당 20회, 체온 36.5°C였다. 환아는 의식은 명료하였으나 급성 병색으로 얼굴은 창백하였다. 흉부 청진에서 호흡음은 정상이었다. 복부는 부드럽고 편평하면서 장음은 정상이었으나, 우하복부에서 종괴가 촉진되었다. 간비종대는 없었다.

검사 소견: 말초 혈액 검사에서 혈색소 13.4 g/dL,

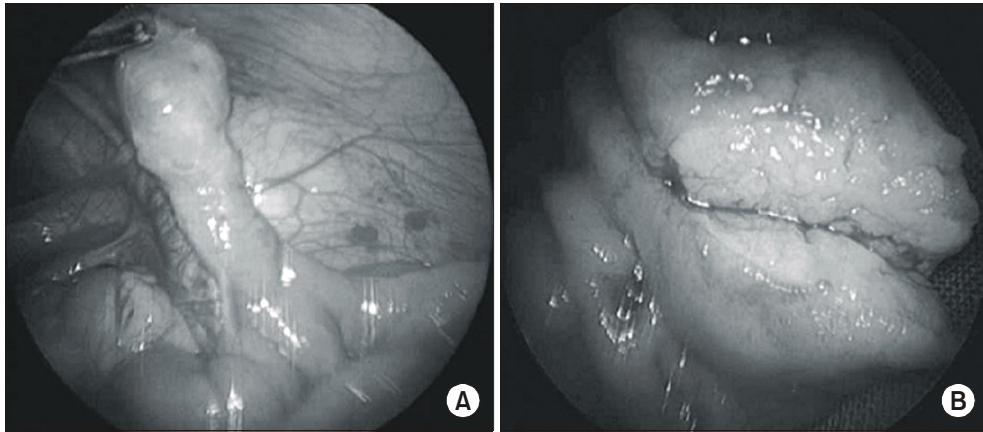


Fig. 3. (A) Laparoscopic view shows the Meckel's diverticulum, measured 3.7×1.3 cm. (B) Gross finding shows the resected nodule contained in the Meckel's diverticulum.

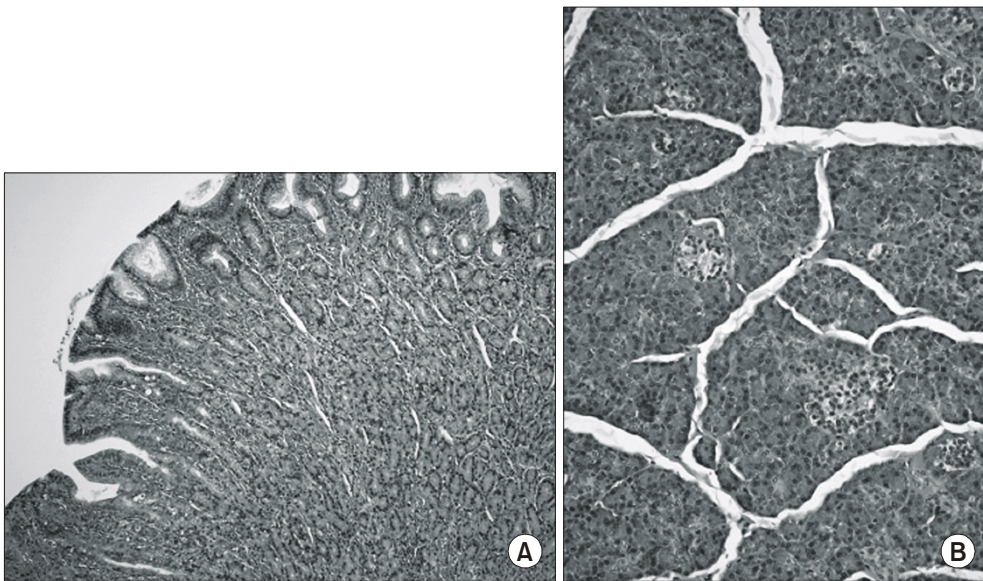


Fig. 4. (A) Histologic finding shows the gastric mucosa within the Meckel's diverticulum (H&E, ×40). (B) Photograph shows pancreatic ductules and islets within the Meckel's diverticulum (H&E, ×200).

고 찰

장중첩증은 근위부 장의 일부가 인접한 하부 장관 내로 함입되면서 장폐쇄 증상을 나타내는 질환으로 소아에서 외과적 응급수술을 요하기도 하는

흔한 질환이다. 대부분 특발성으로 뚜렷한 원인을 찾을 수 없으나, 5세 이후에 발생하는 장중첩증에서는 병적 선두가 흔히 발견된다^{2,3)}. 가끔 Peutz-Jegher 증후군이나 헤노크-쉬라인 자반증과 같은 선형 질환의 임상 양상이 장중첩증의 징후를 나타내는 경우도 있으나, 대개 임상 양상으로는 장중첩증의 병

적 원인의 단서를 발견할 수 없다³⁾.

장중첩증의 병적 선두는 특발성 장중첩증의 호발 연령인 3~12개월을 벗어난 경우에 발생 빈도가 증가한다²⁾. 생후 3개월 이전에 장중첩증은 드물지만 중복낭이나 멕켈 게실이 주 유발 원인이며, 5세 이후에는 림프종, 멕켈 게실, 중복낭, 이소성 조직, 소장 용종, 혈관 기형, 헤노크-쉬라인 자반증에 의한 장벽내 혈종 등 다양한 원인이 선두가 될 수 있다. 그러나 전체적으로는 본 증례에서와 같이 멕켈 게실이 가장 흔한 선두이다³⁾.

멕켈 게실은 태생기에 하부 소장과 배꼽을 연결하고 있던 배꼽창자간막관(omphalomesenteric duct)이 불완전하게 퇴화되어 출생 후에도 남아 있는 것으로 소화기 선천성 기형 중 가장 흔하며 전체 인구의 약 2% 정도에서 발견된다⁶⁾. 대부분 환아는 무증상이지만 50% 이상에서 10세 이전에 장폐쇄, 출혈, 게실염, 천공 등의 합병증이 유발된다^{6,7)}. Park 등⁴⁾에 의하면 멕켈 게실에 발생한 합병증으로 11세 이상에서는 총 180예 중에서 출혈 69예, 장폐쇄 61예, 게실염 50예였고, 11세 이하에서는 총 58예 중에서 장폐쇄 23예, 출혈 18예, 게실염 17예를 보였다. 그리고 St-Vil 등⁵⁾의 연구에서도 18세 이하에서 증상이 유발된 멕켈 게실 117예 중에서 장폐쇄 42%, 출혈 38%, 게실염 14%, 배꼽과 관련된 병적 이상 6%를 보여 소아에서는 장폐쇄가 가장 흔한 합병증이었다. 본 증례처럼 장중첩증이 유발된 경우는 Park 등⁴⁾과 St-Vil 등⁵⁾의 연구에서 각각 13.8%, 16.2%였다. Yahouchy 등⁶⁾은 게실의 길이와 기저부의 직경이 멕켈 게실에서 합병증을 유발하는데 관련되는 선행요인이라고 하면서, 기저부가 좁으면서 긴 게실은 장폐쇄와 염증을 잘 일으키고, 기저부가 넓고 짧은 게실은 이물질이 빠지기 쉽다고 하였다.

멕켈 게실은 이소성 조직을 포함하는 경우가 많아서 본 증례처럼 증상을 유발하여 발견되는 멕켈 게실의 경우 40~80%에서 이소성 조직이 발견된다⁸⁾. Park 등⁴⁾이 메이요 클리닉에서 52년 동안 경험한 멕켈 게실 1,476예의 분석을 보면 이소성 조직의 발생 빈도가 11세 이상에서는 43%, 11세 이하에서는 59%였으며, 이 중에서 위 조직은 11세 이상 33%, 11세

이하 52%였고, 췌 조직은 두 군 모두 5%였으며, 두 가지 조직을 동시에 가진 경우는 없었다. St-Vil 등⁵⁾의 보고에서는 증상을 유발한 멕켈 게실의 61%에서 이소성 조직이 발견되었는데, 위 조직 88%, 췌 조직 7%였으며, 두 가지 조직 모두를 가진 경우는 3%를 보여 멕켈 게실에서 이소성 위와 췌 조직 모두를 가진 경우는 발생이 드뭄을 알 수 있다.

한편, 이소성 위 조직과 췌 조직은 멕켈 게실 이외의 장에서도 발견된다. 특히 이소성 췌장은 85~90%가 위, 십이지장, 공장에서 발생하며, 드물게 일부가 회장이나 멕켈 게실에서 발견된다^{9,10)}. 이소성 췌장은 대부분 증상을 유발하지 않기 때문에, 부검이나 수술 중에 우연히 발견되는 경우가 많지만, 이소성 결절의 크기가 직경 1.5 cm 이상이거나 점막층을 침범한 경우에는 임상적 증상을 동반한다¹⁰⁾. 주증상은 상복부 통증, 불쾌감, 궤양, 출혈, 기계적 장폐쇄증이지만, 장중첩증이 발생한 경우도 드물게 보고되어 있다^{10~12)}. Al-Zahem 등¹³⁾이 보고한 회장에 생긴 이소성 위 조직과 췌 조직에 의해 유발된 장중첩증의 경우는 본 증례와 거의 유사하나 멕켈 게실이 없다는 것이 다르다.

병적 선두에 의해 유발되는 장중첩증은 영상 검사나 수술시에 발견이 된다. 본 증례의 경우는 장중첩증의 관장 정복술 후 관찰 기간 동안에 2차례 더 장중첩증이 재발되어, 병적 선두를 의심하고 시행한 복부 CT 촬영에서 장중첩증과 함께 원위 회장부에서 종괴 음영이 발견되어 복강경을 시행한 결과 선두인 멕켈 게실을 확인할 수 있었다. 본 증례에서와 같이 멕켈 게실에 의해 유발된 장중첩증의 경우 선두를 확인할 수 있는 확진 검사법은 없으나 바리움 관장술이나 복부 초음파 검사, 복부 CT 검사 등으로 알 수 있다. 초음파 검사로 중첩된 장의 원위 선단에서 길쭉한 눈물방울 모양의 종괴를 확인하거나, 복부 CT 검사로 뒤집어진 멕켈 게실이 우측 엉덩 오목(ilic fossa)에서 연부 조직에 의한 음영 감소로 둘러싸인 표적 모양의 종괴를 확인할 수 있다^{14,15)}.

요 약

저자들은 장중첩증의 관장 정복 후 입원 관찰 기간 동안에 2차례 더 재발한 장중첩증을 가진 5세 여아에서 복부 CT 촬영으로 선두를 확인하고 복강경으로 치료한 이소성 위점막과 체조직을 동시에 가진 맥켈 게실에 의한 장중첩증 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

참 고 문 헌

- 1) Stringer MD, Pablot SM, Brereton RJ. Paediatric intussusception. *Br J Surg* 1992;79:867-76.
- 2) Ong NT, Beasley SW. The leadpoint in intussusception. *J Pediatr Surg* 1990;25:640-3.
- 3) Blakelock RT, Beasley SW. The clinical implications of non-idiopathic intussusception. *Pediatr Surg Int* 1998;14:163-7.
- 4) Park JJ, Wolff BG, Tollefson MK, Walsh EE, Larson DR. Meckel diverticulum: the Mayo Clinic experience with 1476 patients (1950~2002). *Ann Surg* 2005; 241:529-33.
- 5) St-Vil D, Brandt ML, Panic S, Bensoussan AL, Blanchard H. Meckel's diverticulum in children: a 20-year review. *J Pediatr Surg* 1991;26:1289-92.
- 6) Yahchouchy EK, Marano AF, Etienne JC, Fingerhut AL. Meckel's diverticulum. *J Am Coll Surg* 2001; 192:658-62.
- 7) Mackey WC, Dineen P. A fifty year experience with Meckel's diverticulum. *Surg Gynecol Obstet* 1983; 156:56-64.
- 8) Schwartz MZ. Meckel's diverticulum and other omphalomesenteric duct remnants. In: Willie R, Hyams JS, editors. *Pediatric gastrointestinal disease*. 2nd ed. Philadelphia: WB Saunders Co, 1999:483-8.
- 9) Tanaka K, Tsunoda T, Eto T, Yamada M, Tajima Y, Shimogama H, et al. Diagnosis and management of heterotopic pancreas. *Int Surg* 1993;78:32-5.
- 10) Armstrong CP, King PM, Dixon JM, Macleod IB. The clinical significance of heterotopic pancreas in the gastrointestinal tract. *Br J Surg* 1981;68:384-7.
- 11) Scholz S, Loff S, Wirth H. Double ileoileal intussusception caused by a giant polypoid mass of heterotopic pancreas in a child. *Eur J Pediatr* 2000;159: 861-2.
- 12) Abel R, Keen CE, Bingham JB, Maynard J, Agrawal MR, Ramachandra S. Heterotopic pancreas as leadpoint in intussusception: new variant of vitellointestinal tract malformation. *Pediatr Dev Pathol* 1999; 2:367-70.
- 13) Al-Zahem A, Arbuckle S, Cohen R. Combined ileal heterotopic pancreatic and gastric tissues causing ileocolic intussusception in an infant. *Pediatr Surg Int* 2005;8:1-3.
- 14) Daneman A, Myers M, Shuckett B, Alton DJ. Sonographic appearances of inverted Meckel diverticulum with intussusception. *Pediatr Radiol* 1997;27: 295-8.
- 15) Daneman A, Lobo E, Alton DJ, Shuckett B. The value of sonography, CT and air enema for detection of complicated Meckel diverticulum in children with nonspecific clinical presentation. *Pediatr Radiol* 1998; 28:928-32.