

하부 위장관 출혈로 진단된 성인의 장중복증 1예

경희대학교 의과대학 외과학교실, ¹병리학교실

박민수 · 이길연 · 이석환 · 김윤화¹

A Case of Adult Duplication Cyst Presenting with Lower Gastrointestinal Bleeding

Min-Su Park, M.D., Kil Yeon Lee, M.D., Suk-Hwan Lee, M.D., Youn Wha Kim, M.D.¹

Departments of Surgery and ¹Pathology, Kyung Hee University College of Medicine, Seoul, Korea

Congenital cystic duplications of the alimentary tract are rare, but can occur anywhere along the GI tract. Ileal duplication cysts account for the majority of diagnosed cases. Symptoms generally develop during infancy or childhood, with diverse presentations. Common manifestations include abdominal pain, an abdominal mass, vomiting, occasional intussusception, perforation, bleeding, and obstructive symptoms. In this report, we present the case of a 20-year-old man with an ileal duplication cyst with obscure lower gastrointestinal bleeding. The patient underwent cyst excision with a primary end to end anastomosis. The patient was discharged on the postoperative 7th day without any complications. **J Korean Soc Coloproctol 2006;22: 271-275**

Key Words: Duplication, Cyst, Lower gastrointestinal bleeding
장중복증, 낭종, 하부 위장관 출혈

서 론

위장관의 중복은 매우 드문 선천성 질환이다. 환자의 80% 이상이 2세 이전에 진단되고,¹ 식도에서부터 항문에 이르기까지 위장관의 어느 부위에서도 발생할 수 있으며, 특히 회장부위에서 발생하는 경우가 가장 흔하다.^{2,3} 장중복증의 육안소견은 낭성 구조이거나 판모

양을 하는 경우가 많으며,⁴ 임상증상은 복통, 복부팽만, 구토 등의 증세를 보일 수 있고, 진행되어 장천공, 장폐쇄, 장출혈 등의 소견을 보이기도 한다.⁵ 장중복증은 대부분이 수술 중에 진단되며 초음파검사, 전산화 단층촬영, 상하부 위장관 촬영 등이 수술 전 진단에 도움을 줄 수 있다. 드물게 선암이나 유암종 등의 악성변화를 보이기도 하며,⁶ 배설장 기형이나 하부요로 기형, 척추 기형 등이 동반될 수 있다.^{7,8}

저자들은 대변 잠혈 검사에서 양성소견을 보인 20세 남자 환자에서 수술 중 시행한 내시경에서 출혈소견을 보이는 회장 부위에 발생한 장중복증 1예를 경험하였기에 보고하고자 한다.

증 례

환 자: 윤○○, 20세 남자

주 소: 대변 잠혈 검사상 양성소견을 보였다.

현병력: 9년 전부터 철결핍성 빈혈로 간헐적으로 철분제를 복용 중이던 남자로서 대변 잠혈 검사에서 양성소견을 보여 외부병원에서 시행한 검사 결과 회장말 단부의 림프양 증식증을 보여 정밀검사를 위해 내원하였다. 평소 반복적인 복통이나 구토 등의 증상은 없었다.

과거력: 산전 검사나 출생 후 검사에서 특별한 이상소견은 없었다. 간헐적으로 철분제를 복용하는 것 외에는 다른 치료를 받은 적은 없었다.

신체검사: 내원 당시 활력 징후는 안정적이었으며, 복부는 부드럽고 편평했고, 복부 팽만 소견은 없었으

접수: 2006년 1월 13일, 승인: 2006년 8월 4일
책임저자: 이석환, 130-702, 서울시 동대문구 회기동 1번지
경희대학교 의과대학 외과학교실
Tel: 02-958-8266, Fax: 02-966-9366
E-mail: leeshdr@khu.ac.kr

본 논문의 요지는 2005년 대한외과학회 춘계학술대회에서 포스터 전시되었음.

Received January 13, 2006, Accepted August 4, 2006

Correspondence to: Suk-Hwan Lee, Department of Surgery, Kyung-Hee University College of Medicine, 1, Hoegi-dong, Dongdaemun-gu, Seoul 130-702, Korea.

Tel: +82-2-958-8266, Fax: +82-2-966-9366

E-mail: leeshdr@khu.ac.kr

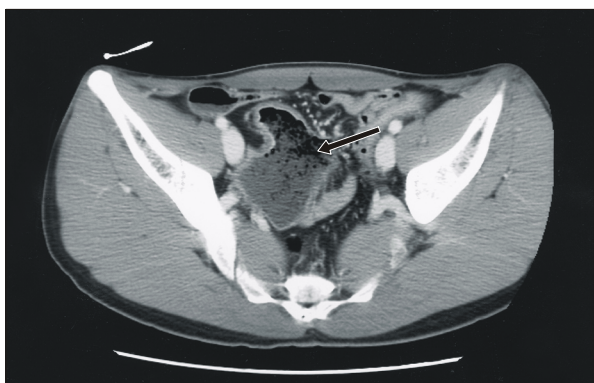


Fig. 1. CT scan shows focal luminal dilatation in terminal ileum (arrow).

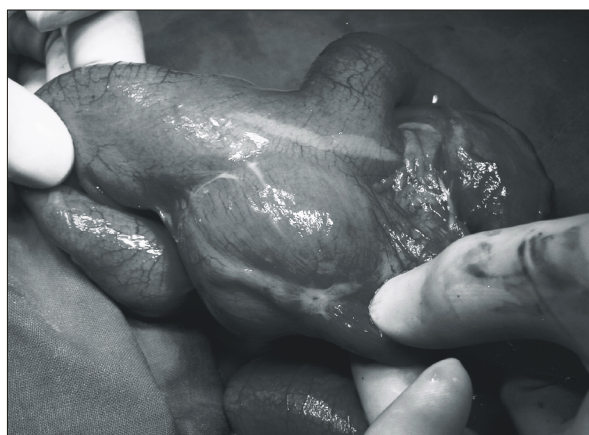


Fig. 3. Operative findings shows the obvious duplication cyst of the terminal ileum.

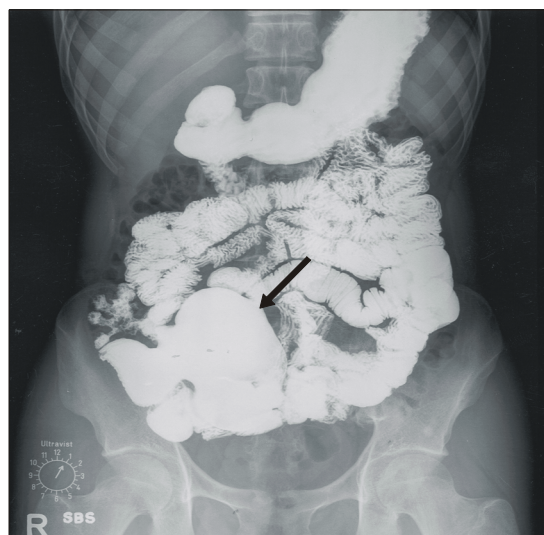


Fig. 2. Barium contrast radiography shows focal segmental luminal dilatation in region of terminal ileum (arrow).

며, 청진상 장음은 정상적으로 들렸다. 복부에 압통이나 반발통은 없었으며, 촉진되는 복부종괴도 없었다. 그 외에 배설장 기형이나 하부요로 기형, 척추 기형 등을 의심할 만한 소견은 관찰되지 않았다.

혈액검사: 혈색소 13.9 g/dl (정상치 13~17 g/dl), 적혈구용적률 41.4% (정상치 39~52%), 평균적혈구용적률 85.4 fl (정상치 80~96 fl), 혈청 철 48 ug/dl (정상치 50~150 ug/dl), 페리틴 89 ng/dl (정상치 15~332 ng/dl), 총철결합능 365 ug/dl (정상치 200~400 ug/dl), 엽산 6.5 ng/dl (정상치 1.5 ng/dl 이상)로 철결핍성 빈혈을 보였다. 다른 생화학 검사나 요검사 소견은 정상이었다.

방사선 검사: 복부전산화단층촬영검사 결과 말단 회

장부의 국소적 팽대소견만을 보였다(Fig. 1). 소장바륨조영술 결과 원위부 및 말단 회장 부위에 점막 주름이 잘 유지되고 정상적인 연동운동을 보이는 국소적인 분절성 팽대 소견만이 관찰되었다(Fig. 2).

수술 소견: 하부 위장관 출혈을 의심케 하는 말단 회장 부위의 국소적 팽대 소견을 보이는 부분을 확인하기 위해 시험적 개복술을 시행하였다. 전신 마취 후 개복하여 복강 내를 관찰한 결과, 회장말단부 60 cm 상방 원위부 회장의 장간막쪽에 위치하고 있는 둥근 종괴를 관찰할 수 있었고, 다른 장기들과의 유착은 보이지 않았으며 경계가 분명하였다. 약 7×6 cm 정도 크기의 낭성종괴였으며(Fig. 3), 병변의 확인을 위해 수술 중 시행한 소장내시경에서 낭성종괴의 출혈성 소견을 관찰할 수 있었으며, 종괴 내 용종이나 악성변화는 관찰되지 않았다(Fig. 4). 종괴는 완전절제 후 회장-회장 단단문합을 시행하였으며, 절제된 종괴는 소장과 연결이 있는 낭성종괴로 장중복증이 의심되었다(Fig. 5). 수술 시 복강 내에 동반된 다른 위장관의 기형을 찾아볼 수 없었으며 또 다른 소장이나 대장부위의 낭성종괴는 관찰되지 않았다.

병리조직학적 소견: 낭성종괴는 소장의 전층을 나타내고 있었으며, 특히 점막은 만성염증소견을 나타내고 있었고, 종양성 증식은 관찰되지 않았다(Fig. 6).

수술 후 경과: 환자는 수술 후 3일째 식이를 진행하였으며, 특별한 합병증 없이 수술 후 7일째 퇴원하였다. 수술 후 6개월에 시행한 대변잠혈검사에서 음성 소견을 보였으며, 혈색소 13.7 g/dl으로 건강히 지내고 있다.

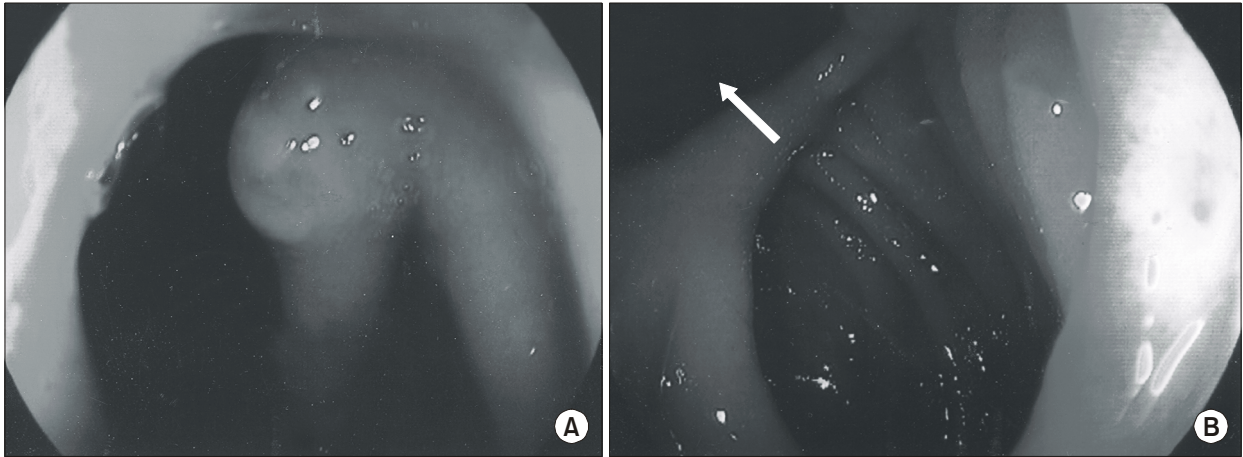


Fig. 4. Endoscopic view of duplication cyst shows hemorrhagic lesion with normal overlying mucosa.

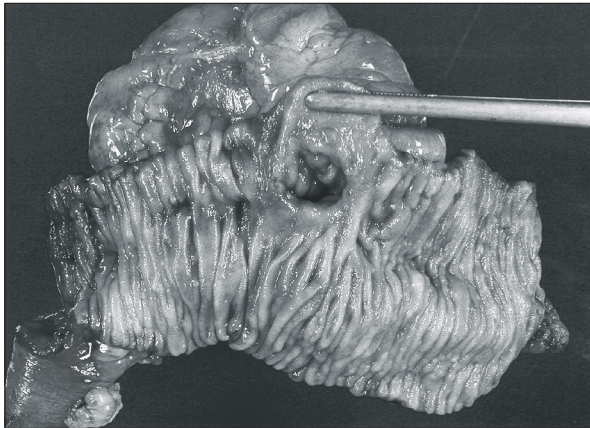


Fig. 5. The duplication cyst communicated with the lumen of the ileum.

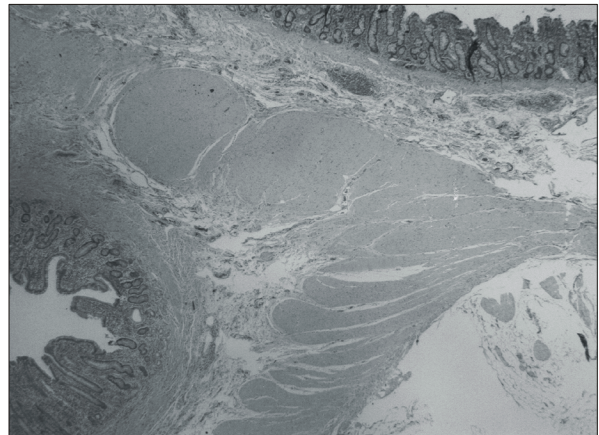


Fig. 6. Photomicrograph of terminal ileal cyst shows normal intestinal wall structure such as mucosa, submucosa and muscularis propria (H&E stain, $\times 40$).

고 찰

장중복증은 매우 드문 선천성 질환으로서, 1947년 Ladd와 Gross⁹가 장중복증에 대한 정의를 내린 이후부터 그 이름이 널리 사용되게 되었다. 그들은 장중복증은 첫째, 위장관의 어느 부분에도 속해야 하며, 둘째, 위장관의 평활근을 포함하고 있으며, 셋째, 소화기계 상피세포를 지녀야 한다고 하였다. 지금까지 장중복증에 대한 가족력이나 유전학적 소인 또는 인종에 따른 발생률의 차이에 대해 아직 명확하게 정립된 것은 없으며, 장중복증은 특히 남아에게서 많이 보고되나,¹⁰ 위에서 발생한 중복증의 경우 여아에게서 더 많이 보고된다.^{1,11}

장중복증의 발생원인에 대해서 여러 가지 가설들이 발표되었는데, Bently와 Smith¹²는 척추결합을 동반한

장중복증을 설명하며, 척삭의 결함에 의해 장중복증이 발생할 수 있다고 하였다. Hudson¹³은 장중복증이 장관의 둘레를 따라 어느 곳에서나 발생하는 것을 보고 태생기의 계실의 정상적인 퇴화의 실패로 인해 장중복증이 발생할 수 있다고 하였으며, Ravitch와 Scott¹⁴는 장중복증은 평행하게 발생한 정상적인 기능을 가지는 구조물이란 twinning procedure로 이를 설명하였다. 그러나, 아직까지 명확하게 장중복증의 발생원인에 대해 정립된 것은 없다.

장중복증은 식도에서부터 항문에 이르기까지 위장관의 어느 부위에서도 발생할 수 있으며, 소장 특히 회장 부위에서 발생하는 경우가 가장 흔하다.^{2,3} 그리고 위에 발생하는 중복증의 경우 대만곡의 원위부에서 많이 발생된다고 한다.¹⁵ 장중복증의 육안 소견은 남성

구조이거나 관모양을 하는 경우가 많으며, 인접한 정상 위장관과 교통하는 경우도 있고, 그렇지 않은 경우도 있다.⁴ 남성구조의 장중복증의 경우, 남성 내 압력 또는 화학적 미란 등에 의한 변성으로 관모양의 경우보다 중복증 내 출혈이 더 많이 발생된다고 한다.¹⁶ 장중복증은 장간막 쪽에 위치하는 경우가 많으며, 정상 위장관과 혈액공급을 공유한다. 본 증례의 경우에도 장중복증은 회장의 말단부의 장간막쪽에 위치하고 있었으며, 등근 남성 구조를 하고 있었다. 또한 소장과 연결되어 있었으며, 수술 중 시행한 소장내시경에서 출혈 소견을 나타내고 있었다.

장중복증은 주로 신생아나 영아기에 진단되는 질환으로, 수술 전 진단되는 예는 드물다. 환자의 80% 이상이 2세 이전에 진단되며,¹ 성인이 되어서 진단되는 경우는 매우 드물다. 증상은 국소적으로 복통, 복부팽만, 구토 등의 증세를 보일 수 있고, 더 진행되어 장천공, 장폐쇄, 장출혈 등의 소견을 보이기도 한다.⁵ 임상증상이 병변의 모양 및 위치 등에 따라 다양하게 변할 수 있어 수술 전 진단이 어려운 경우가 많으나, 다양한 검사들이 진단에 도움을 줄 수 있다. 초음파검사나 전산화단층촬영은 복강 내 남성 종괴의 유무를 확인하여 장중복증의 진단에 도움을 줄 수 있으며, 상하부 위장관 촬영 등은 인접한 위장관과 교통하는 장중복증의 수술 전 진단에 도움을 줄 수 있다. 또한 핵의학 스캔으로 이소성 점막을 찾아내어 장중복증을 진단한 경우도 있었다.^{12,17} 장관의 평활근을 포함하여 소장의 전 조직학적인 층을 포함하는 장중복증의 조직병리학적 소견은 최종적인 진단에 큰 도움을 준다.¹⁸ 본 증례의 경우, 환자는 수술시행 후에야 말단 회장부에 위치하고 있는 출혈성 소견을 보이는 장중복증을 진단할 수 있었다.

장중복증은 선천성 장폐쇄나 장관의 회전이상, 배설강 기형이나 하부요로 기형 그리고 척추나 척수의 기형 등을 동반할 수 있으며,^{7,8} 드물게 선암이나 유암종의 악성변화를 보이기도 한다.⁶ 그러므로 장중복증의 진단 후 이에 대한 추가적인 검사나 치료가 필요할 수 있다. 장중복증은 동반된 기형이나 악성변화에 의한 경우를 제외하면, 완전한 외과적 절제로 별다른 합병증 없이 치유되며 장중복증의 형태, 위치, 동반된 합병증에 따라 수술범위가 다양해질 수 있다. 본 증례의 경우 수술 시 복강 내 동반된 위장관의 기형이나 척수 등의 기형을 관찰할 수 없었으며, 장중복증은 완전절제 후 회장-회장 단단문합을 시행하였다. 조직학적으로 악성변화는 관찰되지 않았다.

저자들은 지속적인 철결핍성 빈혈 소견을 보이며, 대변잠혈검사에서 양성소견을 보인 20세 남자에서 회장에 장중복증을 확인하고 외과적 절제를 시행하였다. 대부분의 장중복증이 영아기나 신생아기에 진단되어 치료되는 것에 비하여 본 예에서는 성인이 되어서야 진단되어었으며, 국소적인 복통, 구토 등의 증상보다는 장출혈로 인한 빈혈소견이 진단에 도움이 되었다는 것이 특징적이다.

REFERENCES

1. Bower RJ, Sieber WK, Kiesewetter WB. Alimentary tract duplications in children. *Ann Surg* 1978;188:669-74.
2. Gross RE, Holcomb GW, Farber S. Duplication of the alimentary tract. *Pediatrics* 1952;9:449-68.
3. Blinder G, Hiller N, Adler SN. A double stomach in the adult. *Am J Gastroenterol* 1999;94:1100-2.
4. Johnson JA 3rd, Poole GV. Ileal duplications in adults. Presentation and treatment. *Arch Surg* 1994;129:659-61.
5. Ildstad ST, Tollerud DJ, Weiss RG, Ryan DP, McGowan MA, Martin LW. Duplications of the alimentary tract. Clinical characteristics, preferred treatment, and associated malformations. *Ann Surg* 1988;208:184-9.
6. Smith JH, Hope PG. Carcinoid tumor arising in a cystic duplication of the small bowel. *Arch Pathol Lab Med* 1985;109:95-6.
7. Ravitch MM. Hind gut duplication: doubling of colon and gut. *Ann Surg* 1953;137:588-601.
8. Louw JH, Cywes S. Embryology and anomalies of the intestine. In: Berk JE, Haubrich WS, Kalser MH, editors. *Bockus gastroenterology*. 4th ed. Philadelphia: W.B. Saunders; 1985. p. 1439-73.
9. Ladd W, Gross RE. *Abdominal surgery in infancy and childhood*. Philadelphia: WB Saunders Company; 1947.
10. Kottra JJ, Dodds WJ. Duplication of the large bowel. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1971;113:310-5.
11. Hocking M, Young DG. Duplication of the alimentary tract. *Br J Surg* 1981;68:92-6.
12. Bentley JF, Smith JR. Developmental posterior enteric remnants and spinal malformations: the split notochord syndrome. *Arch Dis Child* 1960;35:76-86.
13. Hudson HW. Giant diverticular or reduplication of the intestinal tract. *N Engl J Med* 1935;213:1123.
14. Ravitch MM, Scott WW. Duplication of the entire colon, bladder and urethra. *Surgery* 1953;34:843-58.
15. Gupta S, Sleeman D, Alsumait B, Abrams L. Duplication cyst of the antrum: a case report. *Can J Surg* 1998;41:248-50.
16. Wiczorek RL, Seidman I, Ranson JH, Ruoff M. Congenital duplication of the stomach: case report and re-

- view of the English literature. *Am J Gastroenterol* 1984; 79:597-602.
17. Lecouffe P, Spyckerelle C, Venel H, Meuriot S, Marchandise X. Use of pertechnetate ^{99m}Tc for abdominal scanning in localizing an ileal duplication cyst: case report and review of the literature. *Eur J Nucl Med* 1992;19:65-7.
18. Petras RE. Nonneoplastic intestinal diseases. In: Sternberg SS, editor. *Diagnostic surgical pathology*. 2nd ed. New York: Raven Press; 1994. p. 1311-70.
-