

유문부 중복성 낭종 1예 보고

전주예수병원 외과, ¹한림대학교 한강성심병원 외과

박 성 길¹ · 정 을 삼

Pyloric Duplication Cyst

Sung Gil Park, M.D.¹ and Eul Sam Chung, M.D.

Pyloric duplication is a rare anomaly usually manifested as an abdominal mass or gastric outlet obstruction mimicking infantile hypertrophic pyloric stenosis. We experienced a rare case of pyloric duplication without any evidence of a communication to neighboring organs including extrahepatic biliary tree or pancreatic duct in a newborn male patient. We performed a complete excision of that lesion without bowel resection and encountered an uneventful postoperative recovery. (J Korean Surg Soc 2001;62:208-210)

Key Word: Pyloric duplication

중심 단어: 유문부 중복증

Department of Surgery, Presbyterian Medical Center, Jeonju, Korea; ¹Department of Surgery, Hangang Sacred Heart Hospital, Hallym University, Seoul, Korea

서 론

위장관 중복증은 비교적 드문 선천성 질환으로 낭성 및 관상 모양으로 발생하며 위장관의 근육층과 장점막층으로 구성되어 있다. 전체 위장관에서 발생할 수 있으며 특히 회장에서 높은 빈도로 발생한다. 저자들은 구토를 주소로 내원한 신생아에서 유문부 중복을 경험하였기에 관련 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

출생 후 24일된 남아가 2주 전부터 하루 3~4회의 무답

책임저자 : 박성길, 서울시 영등포구 영등포동 94-20

⑨ 150-020, 한강성심병원 외과

Tel: 02-2639-5437, Fax: 02-678-4386

E-mail: pmcgpark@mdhouse.com

접수일 : 2001년 7월 2일, 개재승인일 : 2001년 7월 18일
본 논문의 요지는 2000년 대구에서 개최된 제 16회 대한소아외
과학회 춘계학술대회에서 구연되었음.

증성 구토를 주소로 내원하였다. 출생력 및 산모의 과거력상 특이사항은 없었다. 이학적 소견상 팽만이 없는 부드러운 복부 소견을 보였고, 우상복부에서 유동성 있는 부드러운 종괴가 촉진되었다. 술전 복부 단순 X-선 촬영, 척추 X-선 촬영, 혈액학적 검사 및 생화학적 검사에서는 특이 소견을 발견할 수 없었다. 복부 초음파에서 유문부에 인접한 등근 낭성 종괴가 보였으며 그 내부에는 균질한 양상의 에코(homogenous echo)를 나타냈으며 낭벽은 선형의 2중 에코를 나타내었다(Fig. 1). 복부 전산화 단층촬영상 5×5 cm 크기의 등근 낭성 종괴가 간, 신장과 위 십이지장에 인접하여 위치하였고 위의 팽만이 관찰되었으나 담도의 확장소견은 보이지 않았다(Fig. 2). 장폐색 여부를 확인하기 위하여 실시한 상부위장관 조영술에서는 유문부를 외부에서 압박하는 종괴 효과가 보였으며, 위에서 십이지장으로 조영체의 통과가 지연되었다(Fig. 3). 술전 유문부에서 발생한 중복으로 진단하였다. 술전 관리는 금식 및 비위관을 통한 위감압, 경정맥 영양 공급을 하였다. 생리식염수로 관장을 실시하였다.

수술은 우측 상복부에 횡절개를 하였는데 위의 유문부에 걸쳐 맑은 액체를 포함하는 등근 낭성 종괴가 보였으며 유문부의 외부 압박에 의한 폐색을 보이고 있었다(Fig. 4). 수술은 유문부 후벽을 유지한 채 낭종을 완전 절제한 후 봉합하였다(위-십이지장 문합술). 수술 후 조직검사에서는 내측을 구성하는 점막은 위유문 점막 및 선(腺)으로

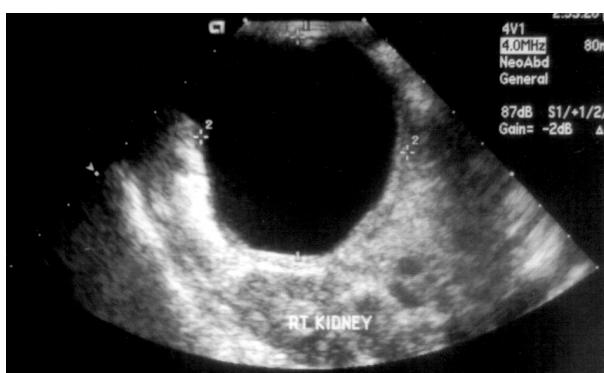


Fig. 1. Preoperative ultrasonogram. Internal homogenous anechoic area with hyperechoic linear lining wall is showed in the cystic mass on suprapyloric area.



Fig. 2. Abdominal CT. Round and 5×5 cm sized cystic mass is presented between liver, kidney and gastroduodenum. And gastric dilatation is seen.

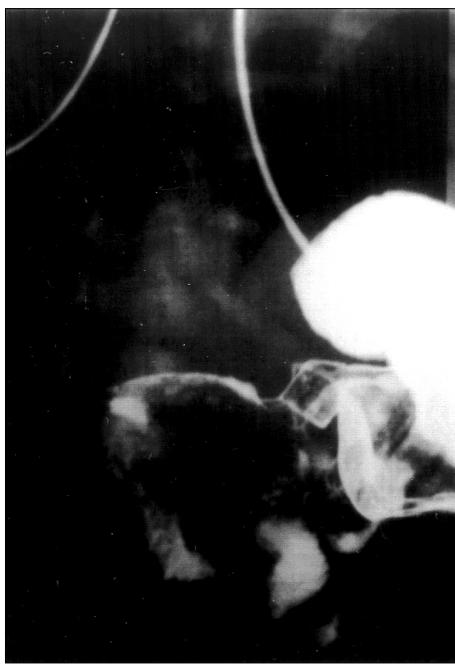


Fig. 3. Upper GI series. Extraluminal mass effect on pyloroduodenal area with gastric outlet obstruction.

구성되었으며 체장조직을 포함하고 있었다(Fig. 5). 수술 후 6일째 gastrografin을 이용한 상부위장관 조영술에서 20분 이상 조영제의 지연통과 소견을 보이며 경미한 협착을 의심하는 소견을 보였다. 술후 9일째 다시 thin-barium을 이용한 상부위장관 조영술을 시행하여 문합부를 잘 통과함이 관찰되었다. 술후 13일째 퇴원하였으며 술후 23일 외래방문에서 경구 우유섭취가 양호하였으며 체중증가도 수술 전(생후 23일) 4 kg에서 생후 10개월 10일 후 11 kg



Fig. 4. Operative findings. Cystic mass is showed on pylorus with external compression of gastric outlet.

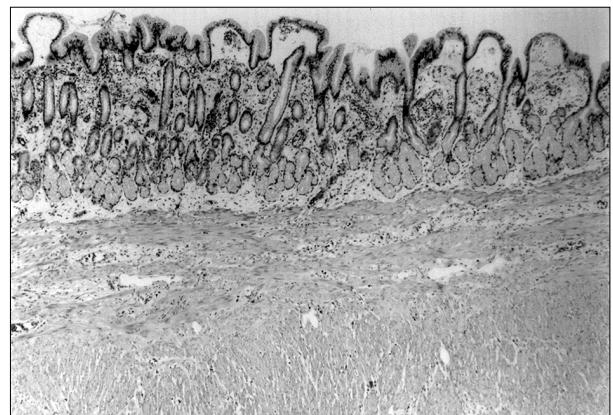


Fig. 5. Histopathologic findings. The gastropyloric mucosa and gland are seen in mucosal surface. Also ectopic pancreas tissue is seen in the cystic wall.

(90 percentile)으로 건강한 상태를 보이고 있었다.

고 칠

위장관 소화기의 중복은 비교적 드문 선천성 기형이다. 1884년 Fitz(1)가 제장관 잔유물(remnants of omphalomesenteric duct)로서의 중복이란 단어를 사용한 이후, Ladd(2)와 Gross(3) 등이 선천성 질환으로 위장관 중복을 보고하였는데 식도부터 항문까지 위장관의 어느 곳에서나 발생할 수 있는 것으로 장관의 근육층과 점막층을 포함하며 낭성 또는 관상 모양을 띠고 있으며 인접 위장관과 교통성 또는 비교통성 양상을 보인다고 보고되어 있다. 위장관에서 발생하는 중복의 발생 빈도는 남녀에서 비슷하다는 보고와 여자보다는 남자에 많다는 보고들이 있고 전체적으로 회장에 가장 많이 발생하는 것으로 되어 있다.(4,5)

우리 나라에서도 1986년 전 등(6)에 의하여 맥켈씨 계실과 관련된 예를 포함한 소장에 발생한 3례의 중복을 보고한 바 있다. 그러나 유문부에서 발생한 중복은 더욱 드물며 여아에서 더 많이 발생한다는 보고도 있다.(7) 발생기전은 확실히 알려지지 않았지만 관강의 재소통 결손설(aberrant luminal recanalization theory), 계실설(diverticular theory), 척추이상과 동반된 신경-장 중복에서의 착살분열설(the split notochord theory in neuroenteric duplications), 외상과 저산 소증에 의한 환경적 요인 등으로 주장되고 있다.(8-11) 주 증상은 발생위치, 크기, 형태, 이소성 조직 유무에 따라 다르지만 출생 후 초기에 또는 충분히 성장한 이후에 장폐색, 출혈, 염증, 재발성 궤양으로 인한 복통 등 다양하게 나타난다. 약 20~50%에서 동반된 기형을 관찰할 수 있으며,(12) 주로 척추의 기형을 동반하는데 척추구열(cleft vertebra), 반척추(hemivertebrae), 척추융합과 측만(vertebral fusion & scoliosis) 등이고, 그외 후장 중복에서는 생식비뇨기계의 중복(genitourinary duplication), 외변증(exstrophies) 등을 동반하고, 중장 중복에서는 장회전 이상과 폐색(intestinal malrotation & atresia)을 주로 동반하며, 다발성 중복을 보이는 경우도 있다.(7,13,14) 약 20~30%에서 이소성 조직으로 위점막, 궤양조직들이 포함되는데 소화성 궤양, 출혈 등이 잘 발생하고 이는 특히 전장에서 발생한 경우에 더 빈발하는 것으로 되어있다.(4,7,12) 수술 전 진단은 증상에 따른 병력과 이학적 검사 그리고 복부초음파나 전산화단층 촬영으로 낭성 종괴를 발견하거나 장폐색을 바륨검사로 진단할 수 있다. 장출혈이 있는 이소성 위점막을 포함한 장중복증의 경우 technetium isotopes를 이용한 방사성 동위원소 영상으로 진단될 수 있다.(15) 최근에는 일반적인 산전 진찰에서 진단되는 경우가 많이 보고되고 있다.(13,16,17) 전장에서 발생한 경우 비교적 잘 발견되지만 후장 또는 중장에서 발생한 경우 진단이 어려워 개복수술시 우연히 발견되는 경우도 있다. 수술은 대부분의 낭성 장중복인 경우 완전 절제가 가능한데, 장간막 쪽에 위치한 경우 인접된 정상 장관도 포함하여 절제할 수 있다. 십이지장 등 궤양도에 인접되어 완전 절제가 불가능한 경우 십이지장내로 조대술(marsupialization) 또는 낭종의 부분절제 및 점막제거술을 시행하며, 회장 및 대장 등의 긴 관상 중복일 경우 정상적인 장기능을 하는 경우에는 절제할 필요가 없으나, 맹계제(blind loop)로 정상적인 장기능을 못하는 경우에는 절제, 점막제거, 또는 인접 장으로의 통과를 위한 응벽절제 또는 절개술을 시행할 수 있다. 최근에는 복강경을 이용한 수술이 많이 보고되고 있다.(16,18)

REFERENCES

- 1) Fitz RH. Persistent omphalo-mesenteric remains: their importance in the causation of intestinal duplicatation, cyst formation, and obstruction. *Am J Med Sci* 1884;88:263-8.
- 2) Ladd WE. Duplications of the alimentary tract. *South Med J* 1937;30:363-74.
- 3) Gross RE, Holcomb GW Jr, Faber S. Duplications of the alimentary tract. *Pediatrics* 1952;9:449-67.
- 4) Holcomb GW III, Ghessari A, O'Neill JA Jr, Shorter NA, Bishop HC. Surgical management of alimentary tract duplications. *Ann Surg* 1989;209:167-74.
- 5) Ildstad ST, Tollerud DJ, Weiss RG, Ptak DP, McGowan MA, Martin LE. Duplications of the alimentary tract-clinical characteristics, preferred treatment, and associated malformations. *Ann Surg* 1988;208:184-9.
- 6) Chun HM, Kim JK, Park WB. Intestinal duplication - a report of 2 cases & 1 case associated with Meckel's diverticulum. *J Korean Surg Soc* 1986;30:259-65.
- 7) Bower RJ, Sieber WK, Kiesewetter WB. Alimentary tract duplications in children. *Ann Surg* 1978;188:669-74.
- 8) Bremer JR. Diverticular and duplications of the intestinal tract. *Arch Pathol* 1944;38:132-40.
- 9) Lewis FT, Thynng FW. Regular occurrence of intestinal diverticula in embryos of pig, rabbit, and man. *Am J Anat* 1908;7: 505-19.
- 10) Bentley JFR, Smith JR. Developmental posterior enteric remnants and spinal malformations. *Arch Dis Child* 1960;35: 76-86.
- 11) Bishop HC, Koop CE. Surgical management of duplications of the alimentary tract. *Am J Surg* 1964;107:434-42.
- 12) Stringer MD, Spitz L, Abel R, Kiely E, Drake DP, Agrawal M, et al. Management of alimentary tract duplication in children. *Br J Surg* 1995;82:74-8.
- 13) Lister J. Duplications of the alimentary tract. In: Lister J, Irving IM (eds): *Neonatal Surgery* (ed 3) Butterworths, London; 1990. p.474-84.
- 14) Favara BE, Franciosi RA, Akers DR. Enteric duplications. Thirty-seven cases: a vascular theory of pathogenesis. *Am J Dis Child* 1971;122:501-6.
- 15) Dell'Erba L, Chimienti R, Calo-Gabbrieli G, Piano A, Scarano B. Tc-99m-pertechnetate scintigraphy in the diagnosis of abdominal disease. *Ann Ital Chir* 2000;71:257-63.
- 16) Schalamon J, Schleef J, Hollwarth ME. Experience with gastrointestinal duplications in childhood. *Langenbecks Arch Surg* 2000;385:402-5.
- 17) Bidewell JK, Nelson A. A prenatal ultrasonic diagnosis of congenital duplication of the stomach. *J Ultrasound Med* 1986; 5:589-90.
- 18) Lee KH, Tam YH, Yeung CK. Laparoscopy in the management of intestinal duplications in childhood. *Aust N Z J Surg* 2000;70:542-4.

1) Fitz RH. Persistent omphalo-mesenteric remains: their importance in the causation of intestinal duplicatation, cyst formation, and obstruction. *Am J Med Sci* 1884;88:263-8.