Case Report

pISSN 2092-8335 • eISSN 2733-5380
Keimyung Med J 2021;40(1):58-61
<https://doi.org/10.46308/kmj.2021.00031>

Received: April 1, 2021

Revised: April 12, 2021

Accepted: April 14, 2021

Corresponding Author:

Seong Wook Hwang, M.D.
Department of Pathology, Soonchunhyang
University Gumi Hospital, Soonchunhyang
University College of Medicine, 179
1gongdan-ro, Gumi, Gyeongsangbuk-do
39371, Korea
Tel: 82-54-468-9422
Fax: 82-54-463-7504
E-mail: g77887@schmc.ac.kr

© 2021 Keimyung University School of Medicine

© 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/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

만성 설사와 복통을 동반한 장관 포상 기종 1례

황성욱

순천향대학교 의과대학 병리학교실

A Case of Pneumatosis Cystoides Intestinalis in a Patient with Chronic Diarrhea and Abdominal Pain

Seong Wook Hwang

Department of Pathology, Soonchunhyang University Gumi Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, Gumi, Korea

Pneumatosis cystoides intestinalis is a rare gastrointestinal complication with multiple gas-filled cysts in the submucosa or subserosa of the bowel wall. It can occur as primary or secondary disease with other etiology. Although this disease is usually asymptomatic and found incidentally during radiologic or endoscopic examination, it can be a cause of severe problem such as obstruction or pneumoperitoneum. The author report a case of pneumatosis cystoides intestinalis in a 45-year-old male with chronic diarrhea and abdominal discomfort.

Keywords: Abdominal pain, Diarrhea, Pneumatosis cystoides intestinalis

Introduction

장관 포상 기종(pneumatosis cystoides intestinalis)은 위장관의 점막하층이나 장막하층에 기체로 채워진 낭포가 관찰되는 비교적 드문 질환이다[1,2]. 원인에 따라 특별한 원인 없이 발생하는 일차성과 다른 질환과 연관되어 발생하는 이차성으로 구분할 수 있는데, 85% 이상이 이차성으로 보고되고 있다[3]. 증상은 대부분 무증상이나 설사, 복통, 변비, 혈변, 체중감소 등 비특이적인 증상을 호소하기도 한다. 심한 경우는 장관 폐쇄, 장염전, 장파열, 장천공, 기복증을 동반하기도 한다[4]. 최근 복부 컴퓨터 단층촬영 및 대장 내시경검사가 널리 이용되면서 장관 포상 기종의 진단이 늘어가는 추세이다. 저자는 최근 만성적인 설사와 복통을 주소로 내원한 45세 남자에서 복부 컴퓨터단층촬영과 대장 내시경검사 및 내시경검사를 통해 확진된 장관 포상 기종 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Case Report

45세 남자가 만성 설사와 복통을 주소로 내원하였다. 내원 1개월 반 전부터 물만 나오는 설사가 지속되다가, 관찰 시 설사 양상의 무른 변을 보았다. 이후 관장을 하지 않을 경우 다시 물만 나오는 배변 양상을 반복적으로 보였으며 별다른 치료 없이 경과만 관찰할 경우 복부 팽만감과 구역감이 동반되었다. 과거력이나 가족력에 특이 사항은 없었다.

활력징후 검사 상 혈압 106/67 mmHg, 심박수 65회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.2도였다. 최근 설사와 변비가 반복되면서 체중이 1년 동안 65 kg에서 57 kg으로

감소하였다. 신체진찰 상 특이 소견은 발견되지 않았다. 검사실 소견으로 일반혈액검사 상 백혈구 수치가 6,360/mL, 혈색소 14.1 g/dL, 적혈구용적율 41.7%, 혈소판 240,000/mL으로 측정되었다. 혈청생화학 검사상 알부민 4.1 g/dL, 총빌리루빈 1.1 mg/dL, AST, ALT는 30 U/L, 16 U/L, BUN, Creatinine은 20.2 mg/dL, 1.0 mg/dL로 측정되었다. 흉부진찰에서도 특이 소견은 없었다. 복부진찰 상 장음이 증가되어 있었고, 촉진 시 약간의 압통을 호소하였으나 반발통은 없었다.

복부 단순방사선촬영에서 소장과 대장 부위에 가스와 대변이 많이 관찰되었고 전반적으로 확장된 양상을 보였다(Fig. 1). 복부 컴퓨터단층촬영에서 대장과 직장 부위에 낭성 혹은 거품 모양의 공기 음영이 다수 관찰되었으며, 장관벽의 비후나 종괴 소견은 보이지 않았다(Fig. 2). 대장 내시경 소견 상 구불결장과 직장 전반에 걸쳐서 다양한 크기의 다발성 용종성 병변들이 관찰되었다. 용종성 병변들은 정상 점막으로 덮여 있었고 내시경 점자로 압박했을 때 탄력이 있었다. 조직검사를 위해서 병변 부위를 절제했을 때 공기가 빠지면서 용기된 병변이 편평해졌다(Fig. 3). 조직병리검사 상 점막하에 염증세포와 다핵성 거대세포로 둘러싸인 낭성 병변이 관찰되었다. 낭종을 덮고 있던 점막은 일부 미란 소견을 제외하고 정상 소견이었다(Figs. 4, 5). 이러한 소견들을 종합하여 본 증례는 장관 포상 기종으로 진단되었다.

Fig. 1. Plain abdominal radiograph shows gaseous dilated small and large bowel loops with large amount of fecal content.

환자는 입원 후 금식 및 수액 치료를 받았고, 이와 함께 metronidazole 정맥투여를 시작하였고 산소흡입치료도 병행하였다. Metronidazole 정맥투여 3일 후 설사 및 복통 증세 대부분이 호전되어서 metronidazole 250 mg 경구투여로 전환한 후 퇴원하였다.

Discussion

장관 포상 기종(pneumatosis cystoides intestinalis)은 장관 벽의 점막하층과 장막하층 부위에서 기체를 함유한 낭종성 병변이다. 발생 원인에 따라 일차성과 이차성으로 분류할 수 있다. 뚜렷한 원인 없이 발생하는 일차성과 달리 이차성 장관 기종은 관련된 다양한

Fig. 2. Abdominal computer tomograph shows cystic or bubbly air collections in sigmoid colon and rectum without significant bowel wall thickening and some air bubbles in small bowel loops.

Fig. 3. Colonoscopic finding shows multiple variable sized polypoid elevated lesions at the sigmoid colon.

Fig. 4. Microscopic examination shows multiple gas-filled cystic lesion with multinucleated giant cells in the submucosal layer (H&E, $\times 200$).

Fig. 5. Microscopic finding shows gas-filled cysts lined by multinucleated giant cells in the submucosal layer (H&E, $\times 400$).

원인들이 보고되고 있다. 그 예로 장마비, 크론병, 궤양성 대장염, 충수돌기염, 괴사성 장염, 장꼬임 등의 위장관 문제와 만성 폐쇄성 폐질환, 교원성 혈관 질환, 스테로이드, 항암제 등의 약제, 수술, 외상 등이 있다[5]. 대부분은 무증상이나 설사, 변비, 복부통증, 혈변, 체중감소, 식욕부진 등의 비특이적 증상을 호소하기도 한다[4]. 예후의 경우 일차성으로 발생하는 경우나 폐질환, 일반적인 위장관 질환 등과 관련된 경우는 예후가 좋은 편이나, 장관 폐쇄, 독성 거대 결장, 허혈성 장질환, 교원성 질환 등과 연관되었을 경우는 예후가 나쁜 편이다[6].

장관 포상 기종의 발생기전은 정확히 알려져 있지는 않지만, 장관 내강의 기체 유입설, 세균에 의한 기체 생성설, 폐질환 합병증으

로 인한 기체 유입설 등의 가설이 알려져 있다[7]. 장관 내강의 기체 유입설은 변비나 폐쇄성 장질환에 동반한 높은 내강압력과 장염, 외상 등에 의한 점막의 손상 등과 관련해서 발생할 수 있다. 세균에 의한 기체 생성설은 수소가스를 생성하는 세균들이 점막내로 침투하여 점막 하나 장막 하에 수소가스를 함유한 낭포를 형성한다는 가설이다. 이 가설은 metronidazole을 사용하는 의학적 근거가 되기도 한다. 폐질환과 관련한 기체 유입설은 폐포가 파괴되면서 폐포 안의 가스가 종격동을 거쳐 후복막, 장막하, 점막하로 이동한다는 가설이다. 이는 폐기종이나 기관지천식 환자에 동반한 장관 포상 기종을 설명하는 하나의 근거이다[1].

장관 포상 기종은 복부 단순방사선촬영이나 복부 컴퓨터단층촬영에서 우연히 발견되는 경우가 많다. 복부 방사선촬영에서는 위장관 벽을 따라서 보이는 방사선 투과성 음영이 특징적이다. 복부 컴퓨터단층촬영이 민감도나 특이도 면에서 장관 포상 기종의 진단에 매우 유용한데, 장관 벽 내에 낭성 혹은 선상, 곡선형의 기체 낭포 소견으로 관찰된다. 또한 복부 전산화단층촬영은 장관 내강의 기체나 지방종 등과 감별에도 유용하고 장관 포상 기종에 동반된 다른 질환들을 진단하는데도 유용하다[8]. 최근 들어서는 건강 검진 등을 목적으로 대장 내시경검사가 보편화되면서 장관 포상 기종의 진단이 증가하고 있다. 대장 내시경검사는 복부 컴퓨터단층촬영에서 감별하기 어려운 용종이나 조기 암종을 진단하는데 장점이 있다. 내시경 소견 상 장관 포상 기종은 내강으로 용기한 점막 하 병변으로 보이고 크기는 낭종의 크기에 따라 다양하다. 조직검사를 위해서 병변 부위를 천자했을 때 낭종 내 가스가 배출되면서 편평해지는 특징이 있다. 낭종 상부의 점막은 대부분 정상이고 간혹 충혈되거나 미란 소견을 보이기도 한다[9]. 조직학적 소견에서 장막하층이나 점막하층에 가스가 채워진 다양한 크기의 낭성 병변과 함께 낭종을 둘러싸고 있는 다핵성 거대세포나 염증 세포들을 관찰할 수 있다.

장관 포상 기종의 치료는 증상과 동반 질환에 의해 결정된다. 합병증이 없는 경우 동반 질환에 대한 치료 및 대증적 치료를 우선적으로 시행하고, 장폐쇄나 장파열 등의 증증 합병증이 동반된 경우 수술적 치료를 고려한다[10]. 일차성 장관 포상 기종의 경우 산소요법과 항생제요법을 시행할 수 있다. 산소요법은 혈류 내와 낭포 내의 기체 농도와 압력 차에 의해서 낭포 내의 가스를 주위 조직으로 확산시키는 원리를 이용한 것으로, 장관 낭포 내의 수소를 혈액으로 확산시켜 낭포의 크기를 감소시킬 수 있다. 산소요법의 경우 낭종이 재발하는 경우가 많아서 48시간 이상의 치료가 권장되며, 마스크, 비강 캐놀라를 통한 산소 요법이 충분하지 않을 경우 고압 산소탱크나 기계적 호흡을 시도해 볼 수 있다[3]. 항생제 요법은 장관 낭포 내 수소가스를 형성하는 세균에 효과적인 metronidazole, vancomycin, ampicillin, tetracycline 등을 투여하는 방법이다. 항생제요법 또한 재발할 가능성이 있어서 2개월 이상 장기 투여가 권장되기도 한다[11]. 이러한 보존적 치료에 반응이 없거나, 장천공, 복강 기종, 장폐쇄, 장염전, 장출혈 등의 증증 합병증이 발생할 경우

수술적 치료가 필요하다[11].

본 증례의 경우 과거력, 가족력, 컴퓨터단층촬영, 대장 내시경검사, 병리조직화학검사 등의 결과들을 종합하여 일차성 장관 포상 기종으로 진단되었다. 입원 후 3일간 금식 및 수액요법, 산소 흡입 치료 그리고 metronidazole 정맥투여 등의 보전적 치료로 증세가 호전되어 metronidazole 경구투여로 전환한 이후 퇴원하였다. 퇴원 후 한달간 metronidazole 경구투여를 하면서 경과 관찰한 결과 관련 증상 대부분이 호전되어 치료를 종결하였다.

Conflict of interest

The author declares no conflicts-of-interest related to this article.

References

1. Galandiuk S, Fazio VW. Pneumatosis cystoides intestinalis. A review of the literature. *Dis Colon Rectum*. 1986;29:358-63.
2. Hanna P, Kassir R, Tarek D, Bassile B, Saint-Eve P, Elias B. Pneumatosis cystoides intestinalis presenting as bowel perforation, a rare entity. *Int J Surg Case Rep*. 2016;20:7-9.
3. Heng Y, Schuffler MD, Haggitt RC, Rohrmann CA. Pneumatosis intestinalis: a review. *Am J Gastroenterol*. 1995;90:1747-58.
4. Gagliardi G, Thompson IW, Hershman MJ, Forbes A, Hawley PR, Talbot IC. Pneumatosis coli: a proposed pathogenesis based on study of 25 cases and review of the literature. *Int J Colorectal Dis*. 1996;11:111-8.
5. Goodman RA, Riley TR. Lactulose-induced pneumatosis intestinalis and pneumoperitoneum. *Dig Dis Sci*. 2001;46:2549-53.
6. Ho LM, Paulson EK, Thompson WM. Pneumatosis intestinalis in the adult: benign to life-threatening causes. *AJR Am J Roentgenol*. 2007;188:1604-13.
7. Berritto D, Crincoli R, Iacobellis F, Iasiello F, Pizza NL, Lassandro F, et al. Primary pneumatosis intestinalis of small bowel: a case of a rare disease. *Case Rep Surg*. 2014;2014:350312.
8. Caudill JL, Rose BS. The role of computed tomography in the evaluation of pneumatosis intestinalis. *J Clin Gastroenterol*. 1987;9:223-6.
9. Shimada M, Ina K, Takahashi H, Horiuchi Y, Imada A, Nishio Y, et al. Pneumatosis cystoides intestinalis treated with hyperbaric oxygen therapy: usefulness of an endoscopic ultrasonic catheter probe for diagnosis. *Intern Med*. 2001;40:896-900.
10. Togawa S, Yamami N, Nakayama H, Shibayama M, Mano Y. Evaluation of HBO2 therapy in pneumatosis cystoides intestinalis. *Undersea Hyperb Med*. 2004;31:387-93.
11. Ellis BW. Symptomatic treatment of primary pneumatosis coli with metronidazole. *Br Med J*. 1980;280:763-4.