

유두부 괄약근 절개술로 치유된 총담관류 1례

곽병원 내과

엄성현 · 강현준 · 김상엽 · 이현철 · 이형화 · 김영성 · 곽동협

A Case of Choledochoceles Treated with Endoscopic Sphincterotomy

Sung Hyun Eum, M.D., Hyun Jun Kang, M.D., Sang Yup Kim, M.D., Hyun Chul Lee, M.D.,
Hyung Hwa Lee, M.D., Yeong Sung Kim, M.D., Dong Hyup Kwak, M.D.

Department of Internal Medicine, Kwak's Hospital, Daegu, Korea

Abstract : A Choledochocoele (type III choledochal cyst) is a cystic or diverticular dilatation of intramural part of the terminal biliary tree protruding into the duodenal lumen. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography is very useful for a correct diagnosis. The choice of the treatment of choledochal cyst is surgical resection, because of possibility of malignant transformation and biliary obstruction. But choledochocoele, reported to have very low potential of malignant transformation, high risk operative complications and morbidity, has been advocated as an alternative to treatment by endoscopic sphincterotomy. We report a case of choledochocoele successfully treated by endoscopic sphincterotomy.

Key Words : Choledochocoele, Endoscopic sphincterotomy

서론

총담관류는 십이지장 벽내부의 총담관이 낭성 또는 게실성 확장을 하는 기형이다[1]. 제 3형 담관 낭종으로 불리며 발생 빈도가 1.5%~5%로 낮고 다른 담관 낭종과 다르게 악성화 경향이 적다[2-4]. 발생 기전은 선천성 담관 확장과 담도내 담석, 유두염, 오디 괄약근의 기능 이상에 의한 후천

성 병변으로 설명된다[5,6]. 복통, 복부 종류, 황달 및 재발성 췌장염이 나타날 수 있으나 1/3에서만 관찰된다[2].

내시경적 역행성 췌담관 조영술을 통한 담도 조영술이 진단에 도움이 되며 복부 전산화 단층촬영 또는 자기공명 담췌관 조영술도 도움이 된다[7,8]. 특징적인 담도 조영술상 소견은 등근 낭상의 총수 담관 원위부가 십이지장 벽내에서 관찰되며 공기로

인한 후광, 정상 점막의 유두부 팽대 및 도관으로 눌렀을 때 pillow sign을 확인할 수 있다[5]. 다른 담관 낭종과 다르게 낮은 악성화 빈도와 해부학적으로 낭종의 완전제거가 용이하지 않다는 이유로 수술적 치료는 논란이 많으나 내시경 유두부 괄약근 절개술의 치료 성적이 비교적 양호하여 추천되고 있다[2-4].

저자들은 상복부 동통 및 황달로 내원한 환자에서 췌장염을 동반한 총담관류로 진단하고 내시경 유두부 괄약근 절개술로 치료한 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고 하는 바이다.

증 례

수년전부터 간헐적인 상복부 동통을 호소한 50세 남자가 내원 1일전부터 발생한 지속적인 상복부 동통 및 오심, 열감으로 내원하였다. 수일 전부터 평소보다 붉은 색의 소변을 보였으나 체중감소는 없었다. 5년 전 위궤양 및 고혈압으로 진료를 받은 병력외 특이사항은 없으며 가족력에서도 특이사항은 없었다. 내원당시 활력징후는 혈압 150/100 mm/Hg, 맥박수 분당 92회, 호흡수 분당 24회, 체온은 38.8℃였고, 급성 병색을 보였으나 의식은 명료하였다. 결막은 창백하지 않았고 공막에는 황달이 있었으며, 구강은 건조하였다. 흉부 진찰에서 이상소견 없었고, 복부 촉진에서 장음은 약간 감소되었으며 우상복부 직접 압통이 있었다.

검사실 소견에서 말초 혈액 검사 소견은 백혈구 12,630/mm³ (호중구 90%), 혈색소 16.5 g/dL, 혈소판 234,000/mm³, ESR 20 mm/hr, 간기능 검사상 총빌리루빈 6.05 mg/dL, 혈청 ALP 393 IU/L, AST/ALT 131/232 IU/L, γ -GT 804 IU/L, amylase/lipase 1200/3289 IU/L 이었다.

방사선학적 검사에서 초음파 소견은 총담관의 확장과 담낭내 담석이 발견되었다. 복부 전산화 단층 촬영은 십이지장 유두부 부근에 반경 15 mm의 낭상 병변이 발견되었고 급성췌장염소견이 있었다 (Fig. 1).

십이지장경 소견에서 십이지장 유두부의 근위

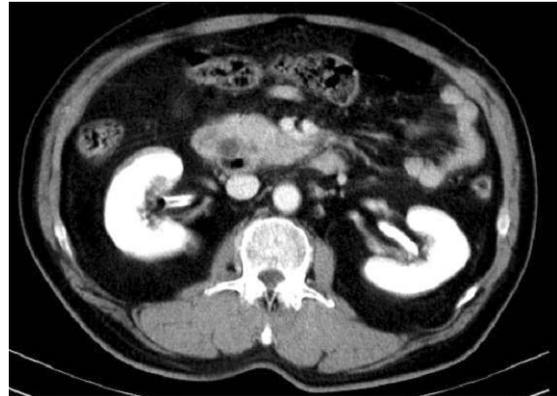


Fig. 1. Contrast enhanced CT scan demonstrates focal cystic dilatation of the distal common bile duct.

부가 낭상으로 팽윤되어 있었으며 카테타로 눌러 보면 부드럽게 들어갔다 다시 나오는 pillow sign이 관찰되었고 점막표면은 정상 소견이었다. 카테타 삽관이 용이하지 않아 침형절개도로 절개하자 저류된 담즙이 분출하였고 총담관류에 가려져 보이지 않던 십이지장 계질이 발견되었다(Fig. 2). 누공을 통해 삽관하여 촬영한 담관조영술에서 유두부 괄약근 절개술을 시행한 후임에도 불구하고 총담관 원위부에 낭상의 조영제 저류가 관찰되었다(Fig. 3).

이후 상복부 동통과 압통 발열은 호전 되고 말초 혈액 검사 및 생화학적 검사 또한 호전되어 복강경하 담낭절제술을 시행받은 후 퇴원하였다. 1년뒤 추적 검사에서 혈액검사, 생화학적 검사, 초음파 검사는 정상이었다. 암성 변화의 가능성을 배제하기 위해 십이지장경하 낭종 내벽에서 조직검사를 실시하였는데 소견상 암성변화는 없었으며 십이지장 점막 상피층을 보여(Fig. 4) 환자의 병변은 선천성으로 확인되었다. 그후 현재까지 특이 증세없이 외래 추적 관찰 중이다.

고 찰

총담관류는 전 담관 낭종의 1.4-5%며 발생빈도가 1/13,000-1/2,000,000로 매우 드문 질환이

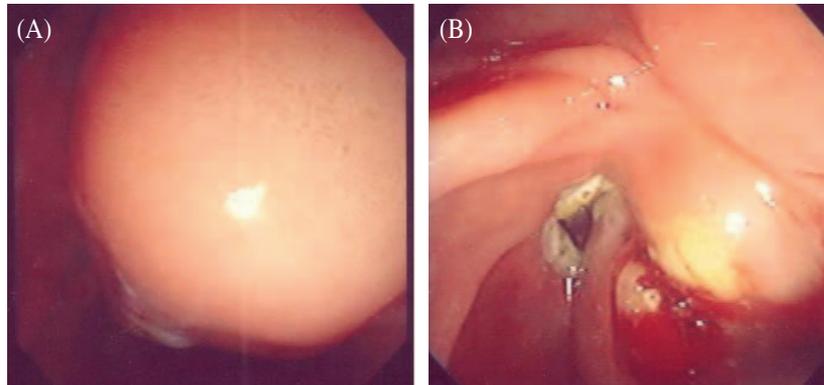


Fig. 2. Duodenoscopic findings of choledochoceles. (A) A pendulous mass at the oral side of the major papilla. (B) Duodenoscopic finding of post-EST shows gush out of bile juice into the duodenum.



Fig. 3. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography finding reveals cystic dilatation of the distal common bile duct.

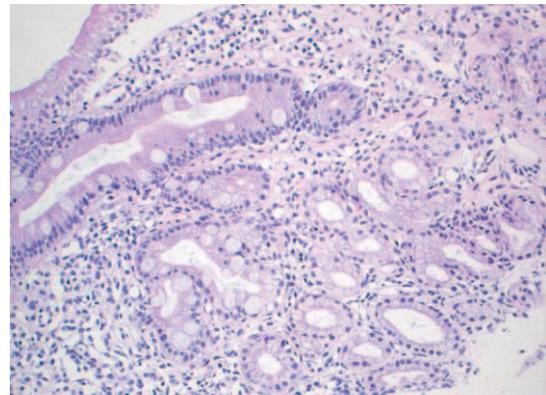


Fig. 4. Biopsy specimen from the inside of the choledochal cyst shows typical duodenal mucosa with Brunner's glands and goblet cells in lining epithelium (H&E stain \times 400)

다[2,9]. 해부학적으로 원위부 총수담관의 십이지장 벽내 부위가 낭상 탈장으로 확장을 한 담관 낭종의 한 형태이며 1977년 Todani 등[10]이 발표한 담관 낭종 여섯가지 중 제 III형으로 분류된다.

총담관류는 1940년 Wheeler에 의해 처음 기술되었고, 1989년 Sarris 와 Tsang[6]이 해부학적 형태에 따라 4군으로 분류하였다. A형은 팽대부가 총담관류내로 개구하여 또 다른 개구부를 통해 십이지장내로 배출되는 형태로서 다시 담관과 췌관이 낭종내에서 공통의 개구부를 가지면 A1형, 각각 낭종에 다른 개구부를 가지고 있으면 A2형, 낭종이

작고 십이지장 벽측에 국한되면 A3로 분류하고, B형은 팽대부가 십이지장으로 직접개구, 총담관의 원위부에 게실형태로 낭상 돌출되는 형태로 정의하였다. 본 증례의 경우는 총담관과 췌관이 낭종내로 분리 개구하는 경우로 A2의 형태를 취하는 것으로 생각된다.

담관낭종의 악성화 빈도는 2.5-17.5%이나, 총담관류의 악성화 빈도는 1.6-2.5%로 일부에서 보고하였으나 낮은 것으로 알려져 있다[2,4,12].

발생기전은 태아와 신생아기에서 원시담도의 상피세포 증식의 불균형으로 십이지장 유두부근처

에서 발생한 십이지장 계실 또는 중복 낭종으로 십이지장 점막상피층으로 이루어진 선천성 병변과 담도내 담석, 오디 괄약근 기능의 장애 또는 유두부의 염증성 폐색으로 인해 총담관의 십이지장 벽 내부위가 확장되면서 벽이 약해져 유두부와 오디 괄약근 사이에 계실이 형성된 병변으로 담도계 점막상피층 또는 미분류된 선상피세포로 구성되는 후천적 병변으로 크게 구분되고 있다[6]. 그리고 선천성 총담관류는 유두부가 근위부에 돌출하고 정상 채담도를 가진 십이지장 중복 낭종과 유사하여 감별진단이 필요하다[18]. 본 증례의 경우 낭종 내벽에서 시행한 조직검사상 십이지장 점막상피층으로 총담관의 확장 및 말단부 총담관에 낭성확장을 하고 유두부가 원위부에 돌출되어 있어 선천성 총담관류로 생각된다.

임상적 특징은 만성적으로 채장액이 담관으로 역류하여 발생하는 반복적인 복통과 황달이 주증상이다[2]. 평균 연령은 46세이나 노년층에서 점차 증가하고 있으며, 담도계 담석 동반율은 41%, 채장액 동반율이 19-45%, 폐쇄성 황달이 약 20%에서 나타났다[4]. 본 증례의 경우 담도계 담석, 채장액 및 간기능 장애 소견이 있었다.

진단방법은 복부 전산화 단층촬영, 자기공명 담채관 조영술, 경피 경간 담관조영술, 내시경 초음파 및 내시경적 역행성 담채관 조영술등이 있고, 이중 내시경적 역행성 담채관 조영술이 가장 좋은 진단방법이며[7,8,13,16], 정상인보다 악성종양의 고위험군으로 조직 생검을 통한 암병변의 유무를 자세히 관찰하여야 한다[3,17]. 본환자의 경우 복부 컴퓨터 단층촬영에서 총담관류를 의심하고 내시경적 역행성 담채관 조영술로 원위부 총담관에 pillow sign확인, 등근 낭상 구조물 및 조영제 주입시 낭상의 조영제 저류가 관찰되었고 유두부내에 감돈담석이 없어 총담관류를 진단했다.

치료방법은 일반적으로 내시경 유두부 괄약근 절개술이 외과적 절개술보다 추천된다. 유두부 괄약근 절개술 후 대부분 환자에서 호전을 보이며[2], 담도 질환에 의한 증상이 호전되며 채액의 담관역류를 막아 암발생의 위험도 역시 감소된다고 하였다[3]. 하지만 일부에서 내시경 유두부 괄약근

절개술 후에 팽대부주위암이 발생할수 있어 추적 내시경 조직생검과 추적 관찰이 필요하다고 하였다[2,17]. Schimpl 등[15]은 치료에 있어서 내시경 역행성 조영술을 시행 하면서 조직검사 결과에 따라 낭종벽이 십이지장 점막상피층의 선천성 병변일 경우 내시경 괄약근 성형술을 시행하고, 담도계 점막상피세포일 경우 악성화 가능성이 있기 때문에 담관류의 전층 완전절제 및 총담관, 채장관의 재건술이 필요하다고 주장하였다. 본 증례는 술후 1년 뒤 내시경 조직생검에서 십이지장 점막을 보였으며 더 이상의 담관염 증상이 없어 유두부 괄약근 절개술로 치료가 된 것으로 사료되었고 추적 관찰 중 악성화는 없었다.

요약

총담관류는 재발하는 채장액이나 복통, 황달이 있는 경우에 비록 빈도가 낮지만, 감별진단에 포함시켜야하고 또한 악성화 가능성이 낮아 치료로 내시경 유두부 괄약근 절개술만으로도 안전하고 효과적이라고 사료된다.

참고문헌

1. Kamisawa T, Yoshiike M, Egawa N, Tsuruta K, Okamoto A, Matsukawa M. Classification of choledochocoele. *Hepatogastroenterology* 2005;**52**:29-32.
2. Ladas SD, Katsogridakis I, Tassios P, Tasteriroglou T, Vrachliotis T, Raptis SA. Choledochocoele, an overlooked diagnosis : Report of 15 cases and review of 56 published reports from 1984 to 1992. *Endoscopy* 1995;**27**:233-9.
3. Ohtsuka T, Inoue K, Ohuchida J, Nabaie T, Takahata S, Niiyama H, et al. Carcinoma arising in choledochocoele. *Endoscopy* 2001;**33**:614-9.
4. Tajiri H. Choledochocoele-containing stones. *Am J Gastroenterol* 1996;**91**:1046-8.

5. Geenen JE. Choledochoceles: endoscopic diagnosis and treatment. In: Tytgat GNJ, Huibregtse K, editors. Bile and bile duct abnormalities. 2th ed. New York: Thieme, 1989; 72-8.
6. Sarris GE, Tsang D. Chodochocoele: case report, literature review, and a proposed classification. *Surgery* 1989;**105**:408-14.
7. 김명환, 진재용, 이선영, 이성구, 민영일. Choledochocoele 1예. *대한소화기내시경학회지* 1993;**13**:137-40.
8. Park DH, Kim MH, Lee SK, Lee SS, Choi JS, Lee YS, et al. Can MRCP replace the diagnostic role of ERCP for patients with choledochal cysts? *Gastrointest Endosc* 2005;**62**:360-6.
9. Savader SJ, Benenati JF, Venbrux AC, Mitchell SE, Widlus DM, Cameron JL, et al. Choledochal cysts: classification and cholangiographic appearance. *AJR Am J Roentgenol* 1991;**156**:327-31.
10. Todani T, Watanabe Y, Narusue M, Tabuchi K, Okajima K. Congenital bile duct cysts: classification, operative procedures, and review of thirty-seven cases including cancer arising from choledochal cyst. *Am J Surg* 1977;**134**:263-9.
11. 이창훈, 서동완, 문규, 이상수, 이성구, 김명환 외. 악성 변화가 동반된 총담관류 1예. *대한내과학회지* 2006;**70**:S156-60.
12. Yamaguchi M. Congenital choledochal cyst. Analysis of 1,433 patients in the Japanese literature. *Am J Surg* 1980;**140**:653-7.
13. 송승찬, 문광호, 조균석, 최호순, 이오영, 한동수 외. 유두부 괄약근 절개술로 치유한 choledochocoele. *대한소화기내시경학회지* 1998;**18**:781-7.
14. Dohke M, Watanabe Y, Okumura A, Amoh Y, Oda K, Ishimori T, et al. Anomalies and anatomic variants of the biliary tree revealed by MR cholangiopancreatography. *AJR Am J Roentgenol* 1999;**173**:1251-4.
15. Schimpl G, Sauer H, Goriupp U, Becker H. Choledochocoele: importance of histological evaluation. *J Pediatr Surg* 1993;**28**:1562-5.
16. Eisenman R, Tsang TK, Crampton A, Tiongco F. Combined endoscopic-percutaneous-assisted sphincterotomy in the treatment of choledochocoele. *Gastrointest Endosc* 1995;**42**:99-100.
17. 조현근, 홍성일, 최진희, 김명환, 한기준, 박인서 외. 췌장염으로 발현된 유두부 주위 계실을 동반한 총담관류 1예. *대한소화기내시경학회지* 2007;**34**:119-24.
18. Antaki F, Tringali A, Deprez P, Kwan V, Costamagna G, Le Moine O, et al. A case series of symptomatic intraluminal duodenal duplication cysts: presentation, endoscopic therapy, and long-term outcome. *Gastrointest Endosc* 2008;**67**:163-8.

투 고 규 정

1. 본지에 게재할 원고는 원저, 증례보고, 중설, 연구단보, 독자의 의견 등으로 하되 다른 학술지에 발표되지 않은 것이어야 한다. 단, 중설은 편집위원회에서 위촉하는 것을 원칙으로 하며 작성방법은 따로 정한다.
2. 년 2회 발간함을 원칙으로 하며, 원고는 수시로 접수하고 접수일자는 원고가 편집위원회에 접수된 날짜로 하며, 원고의 게재 확정일자는 심사가 완료된 날짜로 한다.
3. 사람을 대상으로 한 실험결과를 보고할 경우, 인체 실험의 윤리성을 검토하는 연구수행 기관의 내부 '임상 시험윤리위원회'와 1975년 헬싱키 선언(1983년 개정판)의 윤리기준에 부합하는지를 기록하여야 한다.
4. 본 잡지에 게재된 논문의 저작권은 계명대학교 의과대학이 소유한다.
5. 제출용 원고는 A4 용지에 상하좌우 최소 2.5cm의 여백을 둔다. 본문의 글씨는 신명조 10(폰트), 2열 간격(double space)으로 작성한다. 표지 하단에 교신저자의 이름과 연락처(우편주소, 전화 및 팩스번호, 전자메일 주소)를 명기한다. 표와 그림은 깨끗하고 선명해야 하며, 사진은 인화하여 그대로 게재할 수 있어야 한다.
6. 원고는 다음 요령으로 작성한다.
 - 가. 원고는 표지(Title), 초록(Abstract, Key Words 포함), 서론(Introduction), 재료(연구대상) 및 방법(Materials & Methods), 성적(Results), 고찰(Discussion), 요약(Summary), 참고문헌(References), 표 및 그림 순으로 구성한다. 매 단원은 새 쪽에서 시작한다.
 - 나. 용어는 과학기술용어집이나 의학용어집의 규정에 따르며, 단위 및 약어는 국제적인 관례에 따른다.
 - 다. 표, 그림, 사진의 제목과 설명은 영문으로 작성, 첫글자만 대문자로 표기한다.
 - 라. 학명의 속종명과 라틴어원의 단어(*et al*, *in Vivo*, *in Vitro* 등)는 이태릭체로 작성한다.
 - 마. 참고문헌 표기방법
 - 참고문헌은 본문에서 인용한 순서대로 번호를 붙인다.
 - 저자가 6인 이하면 모두 기술하고 7인 이상인 경우에는 6인까지만 적고 국문은 __외로, 영문인 경우는 __, *et al.*로만 적는다.
 - 잡지명의 약어는 Index Medicus에 준한다.
 - 표기형식은 다음과 같다.
 - 1) 논문 - 저자명. 제목. 잡지명(이태릭체). 발행년도;권수:면수.
 - 2) 단행본 - 저자명. 도서명(이태릭체). 판차. 출판지:출판사;출판년,면수.
 - 본문에서 참고문헌 인용은 Vancouver형식으로 기술하되, 대괄호안에 표기한다.
7. 계명대의학술지의 투고규정은 국제의학학술지 편집위원회에서 마련한 "생의학 학술지에 투고하는 원고의 통일 양식(Uniform Requirements for Manuscripts Submitted to Biomedical Journals. International Committee of Medical journal Editors, 1997; www.acponline.org/journals/annals/01jan97/unifreq.htm)에 준하며, 본 규정에 명시되지 않은 사항은 상기 양식의 일반적인 원칙에 따른다.

저작권에 관한 동의서

논문제목:

라는 제목의 논문이 “계명의대학술지”에 출간될 경우 그 저작권을 계명대학교 의과대학에 위임한다.

저자는 저작권 이외의 모든 권한 즉, 특히 신청이나 향후 논문을 작성하는 데 있어서 본 논문 일부 혹은 전부를 사용하는 등의 권한을 소유한다. 저자는 계명의대학술지 편집위원회로부터 서면으로 승인을 받으면 타 논문에 본 논문의 자료를 사용할 수 있으며, 이 경우 자료가 발표된 원 논문을 밝힌다. 논문의 모든 저자는 본 논문에 실제적이고 지적인 공헌을 하였으며 논문의 내용에 대해서 책임을 공유한다.

본 논문은 과거에 출판된 적이 없으며 현재 타 학술지에 제출되었거나 제출할 계획이 없음을 보장하고 아래에 서명하는 바이다.

제1저자/	년	월	일	(서명)
제2저자/	년	월	일	(서명)
제3저자/	년	월	일	(서명)
제4저자/	년	월	일	(서명)
제5저자/	년	월	일	(서명)

(6명 이상의 저자가 있는 경우에는 이면에 서명해도 가함)

編輯委員長：徐民濩

編輯委員：金仁浩 · 金千鎰 · 金興殖 · 柳南熙 · 文教哲 · 朴成培 · 朴源均 · 孫銀翼 · 申英姬 · 李相度 · 崔世永

Editorial Board : Min Ho Suh

Nam Hee Ryoo

Eun Ik Son

In Ho Kim

Kyo Cheol Mun

Yeong Hee Shin

Chun Il Kim

Sung Bae Park

Sang Doe Yi

Heung Sik Kim

Won Kyun Park

Sae Young Choi

계명의대학술지

Keimyung Medical Journal
December 2008

2008年 12月 27日 印刷

2008年 12月 30日 發行

發行所 啓明大學校 醫科大學

700-712 大邱廣域市 中區 東山洞 194

Publisher

Hyun Chul Kim, M.D.

Keimyung University School of
Medicine

194 Dongsan-Dong, Chung-Gu,
Daegu, Korea, 700-712

發行人 金玄徹

編輯人 徐民濩

印刷人 權浩謙

Editor in Chief Min Ho Suh, M.D.

Printer Ho Kyuem Kwon