

## 급성 췌장염을 동반한 불완전 분할췌와 담췌관합류이상 기형이 동반된 소아 환자의 내시경 치료

연세대학교 의과대학 내과학교실 소화기내과, 소화기병 연구소

박준범 · 서주희 · 박정엽 · 박승우 · 송시영 · 정재복 · 방승민

### Endoscopic Treatment of a Pediatric Patient with Acute Pancreatitis Caused by Anomalous Union of Pancreaticobiliary Duct Combined with Incomplete Pancreatic Divisum

Jun Beom Park, M.D., Joo Hee Seo, M.D., Jung Yeup Park, M.D.,  
Seung Woo Park, M.D., Ph.D., Si Young Song, M.D., Ph.D.,  
Jae Bock Chung, M.D., Ph.D., and Seungmin Bang, M.D.

Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine,  
Institute of Gastroenterology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

The most common causes of acute pancreatitis are microlithiasis and alcohol. In pediatrics, anomalies in pancreaticobiliary system should be considered as possible causes. Among many anomalies, pancreas divisum associated with anomalous pancreaticobiliary ductal union (APBDU) is very rare. APBDU is associated with acute pancreatitis, choledochal cyst, and gallbladder cancer. Pancreas divisum is also a well known cause of acute recurrent pancreatitis. In adult cases with such conditions, the role of endoscopic management including sphincterotomy or stenting through the Santorini duct is well documented. However, it is still controversial to perform endoscopic retrograde cholangiopancreatography in pediatrics. Herein, we experienced a case of 4 year 7 month old female patient suffered from recurrent attacks of acute pancreatitis, which were caused by APBDU and incomplete pancreas divisum. She was treated by endoscopic sphincterotomy of both openings to the Santorini's and Wirsung's ducts. Thus, we report this interesting case with literature review. (**Korean J Gastroenterol 2009; 54:333-336**)

**Key Words:** Pancreas divisum; Anomalous pancreaticobiliary ductal union; Pediatrics; Acute pancreatitis

#### 서 론

급성 췌장염의 가장 흔한 원인으로는 알코올 및 미세 결석이 있다. 그러나 소아의 경우 상기 원인만으로는 질병의

기전을 설명하기 힘들며 발생학적 측면의 췌담관계 이상 소견에 대한 고찰이 반드시 필요하다. 급, 만성 췌장염과 연관된 췌담관계의 발생학적인 이상 소견 중 췌담관 합류이상<sup>1-3</sup>과 불완전 분할췌는 각각 국내에서 여러 사례가 보고된 바

접수: 2009년 5월 20일, 승인: 2009년 6월 21일  
연락처: 방승민, 120-752, 서울시 서대문구 성산로 250  
연세대학교 의과대학 내과학교실 소화기내과  
Tel: (02) 2228-1995, Fax: (02) 393-6884  
E-mail: bang7028@yuhs.ac

Correspondence to: Seungmin Bang, M.D.  
Division of Gastroenterology, Department of Internal Medicine,  
Institute of Gastroenterology, Yonsei University College of Medicine,  
250, Seongsan-ro, Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea  
Tel: +82-2-2228-1995, Fax: +82-2-393-6884  
E-mail: bang7028@yuhs.ac

있다.<sup>14</sup> 췌담관 합류 이상의 경우 이번 증례의 경우처럼 급성 췌장염을 동반하기도 하지만, 세부유형별로 담관 낭종, 담낭암과의 연관성이 높은 것으로 알려져 적절한 수술 혹은 내시경 치료가 필요하다. 아울러 불완전 분할체의 경우는 급성 재발 췌장염, 만성 췌장염 및 만성 췌장 통증과 관련이 있는 것으로 알려져 있으며, 1970년대 내시경 역행 담췌관 조영술의 시작과 함께 조사된 바에 의하면, 분할체가 있는 경우 대조군에 비해 췌장염의 빈도가 증가한다는 보고가 있다.<sup>12</sup>

이번 증례는 급성 췌장염으로 내원한 소아에서 췌담관 합류이상과 불완전 분할체로 진단된 예로 이와 같이 두 가지의 발생학적인 이상 질환이 동반된 경우가 소아에서 보고된 바는 아직 없다. 또한 이번 환아는 내시경 역행 담췌관 조영술을 통한 십이지장 주유두와 부유두 괄약근 절개술을 통해 치료되었기에 이번 증례처럼 췌담관 합류 이상(제1형, 췌담관형)과 불완전 분할체가 동반된 소아 환자의 치료로써 내시경 괄약근 절개술이 유용한 방법이 될 수 있기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

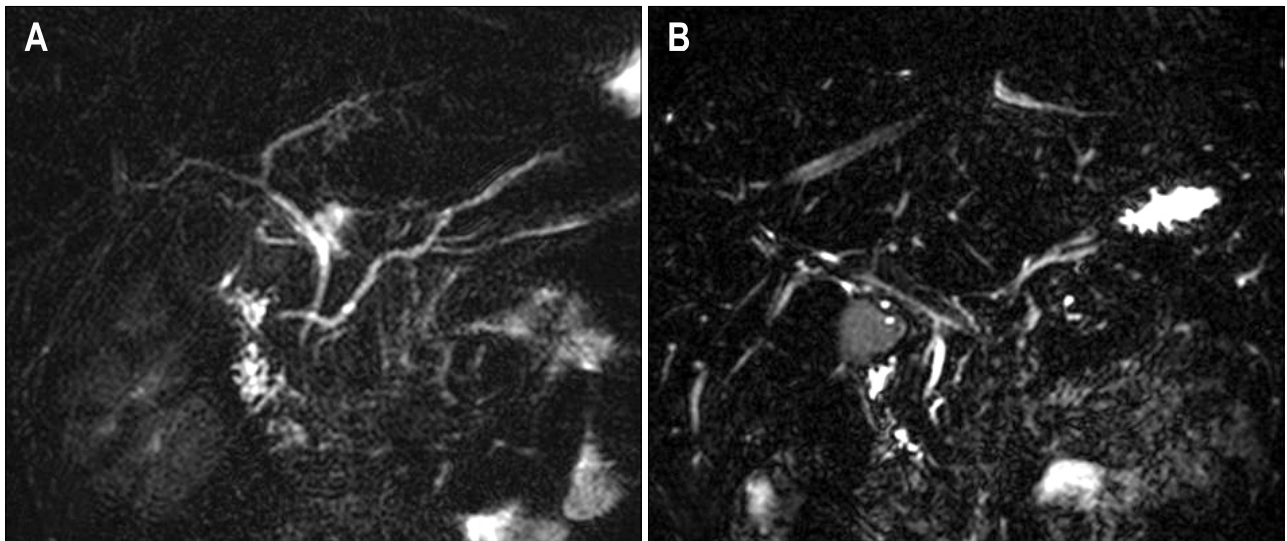
### 증 례

4년 7개월 된 여아는 과거력 및 가족력에서 특이 소견이 없던 환아로, 2일간의 간헐적인 우상복부 통증과 하루 2-3회의 구토를 주소로 21일간 타 병원에서 입원치료 하였으며, 입원 당시 아밀라아제 1,135 U/L, 리파아제 2,950 U/L이었으며, 3주 후 퇴원 당시에는 아밀라아제 152 U/L, 리파아

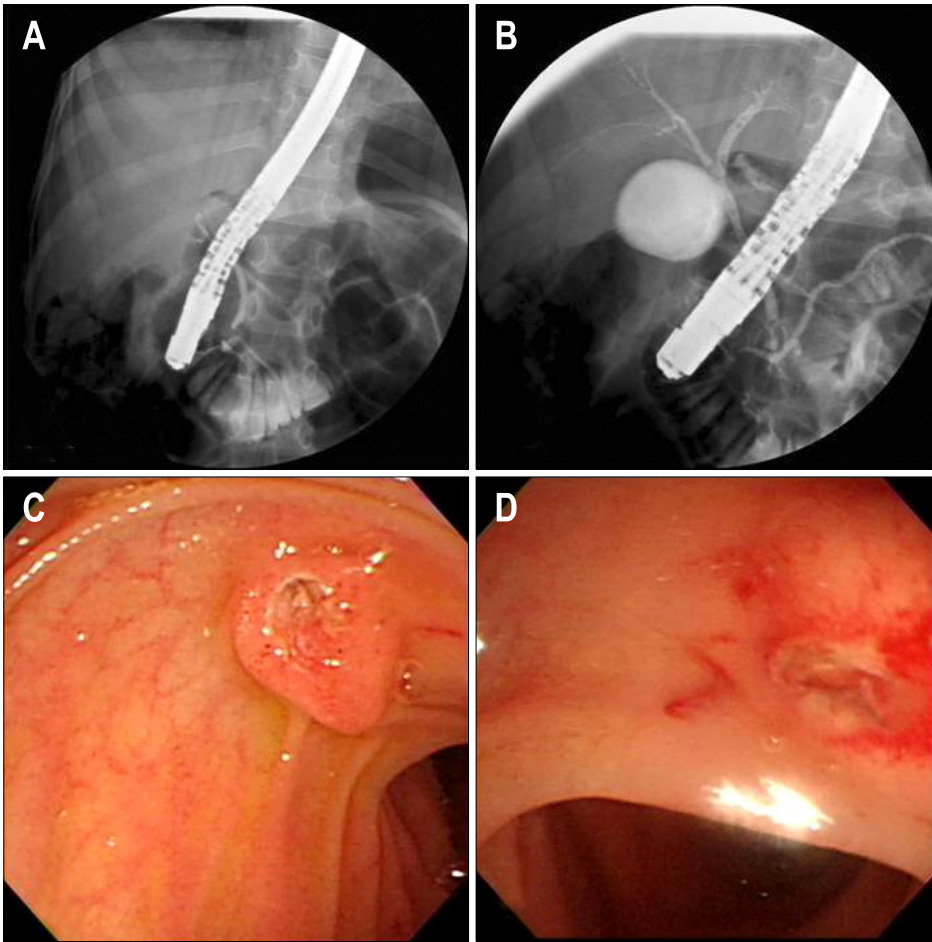
제 352 U/L로 감소 양상이었으나, 오심과 구토 증상이 지속 되어 본원 응급실로 내원하였다.

본원 입원 당시 혈압은 80/43 mmHg, 맥박은 85회/분, 호흡수는 26회/분, 체온은 36.1°C였으며, 급성 병색을 보이지는 않았고, 오심을 동반하는 것 외에 경흉부 및 복부에 대한 진찰 조건에서 복부는 편평하였고, 부드러웠으며, 정상적인 장음 소견을 보였다. 입원 당시에 시행한 말초 혈액 검사에서 백혈구 7,560/uL (호중구 38.5%, 림프구 53.2%), 혈색소 12.6 g/dL, 혈소판 398,000/uL이었다. 혈청 생화학 검사에서는 AST 30 IU/L, ALT 7 IU/L, 총 빌리루빈 0.4 mg/dL, 아밀라아제 101 U/L, 리파아제 267 U/L, BUN 7.1 mg/dL, Cr 0.39 mg/dL, 총 단백 7.3 g/dL, albumin 4.9g/dL, 콜레스테롤 129 mg/dL, 공복혈당 89 mg/dL, CRP 0.167 mg/dL이었다.

외부에서 시행한 복부 전산화단층촬영에서 간, 담낭, 췌장, 비장과 신장의 비정상 소견을 발견할 수 없었으나, 본원에서 시행한 복부 전산화단층촬영과 자기공명영상에서 배쪽 췌관과 총담관이 주유두부로 주행하고 있으며 등쪽 췌관이 부유두부로 주행하고 있는 부분 분할체 소견과 췌관의 미만성 확장이 관찰되었다(Fig. 1). 내시경 역행 담췌관 조영술에서는 십이지장 주유두부의 도관 삽관 후 담관 및 주췌관의 묘출을 시도하는 과정에서 비교적 긴 공통관을 통해 부분적으로 퇴화된 배쪽 췌관이 관찰되었으며 이와 동시에 총담관이 배쪽 췌관으로 합류하는 담췌관 합류 이상 소견을 보였고, 부유두관을 통한 췌관의 묘출에서 확장된 등쪽 췌관을 통해 췌장 몸통 이하의 주췌관이 확장되어 관찰되는 불완전 분할체의 소견도 함께 보이고 있었다(Fig. 2).



**Fig. 1.** Initial MRCP findings. (A) Prominently dilated dorsal pancreatic duct communicated straightforwardly with main pancreatic duct of pancreatic body and tail was noted. Otherwise, the ventral pancreatic duct showed minimal communication to upstream main pancreatic duct. (B) Distal common bile duct ran into ventral pancreatic duct prematurely and formed common channel, which drained into major papilla.



**Fig. 2.** ERCP findings. (A) The common channel with conjoined common bile duct was noted from major papilla. (B) The main pancreatic duct was well-visualized from minor papilla of duodenum. (C) The major papilla treated with endoscopic sphincterotomy. (D) The minor papilla treated with endoscopic sphincterotomy.

이번 환자의 경우 phenobarbital 정맥내 주사를 통한 전신 마취하에 내시경 유두부 괄약근 절개술을 부유두부와 주유두부에서 시행하여 담즙과 췌액의 배출을 용이하게 하였다 (Fig. 2). 이후 특이 부작용 없이 아밀라아제와 리파아제 수치가 정상으로 회복하고 통증 감소하여 입원 26일째 퇴원하였다. 내시경 유두부 괄약근 절개술 후 22일째 외래에서 시행한 자기공명영상에서는 등쪽 췌관의 지름이 이전에 비해 감소되었고(Fig. 1), 이후 현재까지 6개월 동안 증상 재발 없이 외래에서 추적 관찰 중이다.

### 고 찰

췌관과 관련된 가장 흔한 발생학적 변이는 분할체로서 10% 정도에 이르며, 내시경 역행 담취관 조영술을 경험한 환자에서 분할체가 보고된 경우는 부유두부의 조영술 성공 여부에 따라 0.3%에서 7.5%까지 보고되고 있다.<sup>2,3</sup> 췌장의 발생과정에서 등쪽 췌장 배아가 배쪽 췌장 배아와 융합하게 되는데 이 과정이 원활하지 않으면, 등쪽 췌관은 부유두부를 통해 그리고 배쪽 췌관은 주유두부를 통해 췌액을 배출

하게 되는데 이를 분할체라 부른다. 이 경우 상대적으로 많은 양의 췌액이 직경이 작은 부유두부를 통해 흘러가게 됨으로써 췌장액의 저류가 유발된다. 배쪽 췌관과 등쪽 췌관의 압력을 비교하면, 분할체가 있는 군에서 대조군에 비해 등쪽 췌관의 압력이 상대적으로 높다.<sup>4</sup>

소아에서 분할체는 드문 경우로써 현재까지 보고된 사례는 많지 않다. Forbes 등의 보고에 따르면 급성 재발 췌장염과 만성 췌장염이 있는 25명의 소아를 대상으로 한 후향 연구에서 4명의 소아가 분할체를 가지고 있어 분할체와 췌장염과의 관련성을 시사하고 있다.<sup>5</sup> 그러나 6,000명의 환자들을 대상으로 한 후향 연구에서는 췌장염을 경험한 환자에서 분할체의 비율이 일반 대조군의 비율과 큰 차이가 없다고 보고하기도 하여 분할체와 췌장염의 관련성을 정확하게 분석하기 위해서는 췌장염을 세분화하고 이에 따른 분할체의 비율을 분석하는 작업이 선행되어야 할 것이다.<sup>6,9</sup>

분할체와 관련된 급성 재발 췌장염과 만성 췌장염의 치료에 있어서 내시경 유두괄약근 절개술이 보고된 바 있으며, 분할체와 연관된 급성 재발 췌장염에서 등쪽 췌관의 괄약근 절개술과 스텐트 삽입술이 증상의 호전에 탁월하다는 보고

도 있다.<sup>9,10</sup> 또한, 대조군과 비교 연구에서도 부유두부의 괄약근 절개술과 스텐트 삽입술을 시행한 군이 우월한 증상 호전을 보이는 것으로 나타났다.<sup>11,12</sup> 이러한 과거 연구 결과를 바탕으로 이번 증례에서 시행한 것과 같은 부유두부 괄약근 절개술은 소아에서 발견된 분할체에에서도 효과적인 치료가 될 것으로 생각한다.

다음으로, 담췌관 합류 이상은 췌담관의 공통관이 비정상적으로 길어진(>15 mm) 것을 말하며, 합류유형에 따라 췌담관형(1형)과 담-췌관형(2형)으로 나뉘게 된다. 국내에서는 역행 담췌관 조영술을 통해 담췌관 합류이상으로 진단된 55명의 24년간 증례보고에서 담관낭종, 담낭암 및 담관 결석과의 연관성을<sup>13</sup> 보이고 있어, 담췌관 합류 이상으로 진단될 경우 동반 질환에 따른 치료 방법이 달라지게 됨을 시사하고 있다. 이번 증례의 경우처럼 소아에서 담췌관 합류 이상 소견을 보일 경우 향후 재발 췌장염이나 담관 낭종, 담낭암으로의 관련성을 감안하면 치료 및 추적 관찰이 중요할 것이다.

이번 증례와 같이 췌담관 합류 이상과 분할체가 공존하는 경우는 발생학적으로 흔한 소견이라 볼 수 없고 이에 따른 급성 재발 췌장염, 만성 췌장염뿐만 아니라 담관낭종과 담낭암과의 관련성에 대한 연구 자료가 부족한 실정이다. 따라서 두 가지의 발생학적인 변이를 동시에 가지고 있을 경우 향후 발생하게 될 2차적인 질병과 예후에 대한 예측이 더욱 힘들어지게 되며, 치료 방법에 따른 증상의 재발 및 호전의 정도 또한 달라지게 된다. 환자군이 소아라는 점을 감안하면 발생학 측면의 췌담관이상과 분할체에 대한 검사가 선행되어야 한다. 각각의 형성 이상에 따른 관련 질병의 향후 추적관찰이 동반되어야 하고, 치료에 있어서도 내시경 및 수술 치료가 고려되어야 할 것이다.

**참고문헌**

1. Delhaye M, Cremer M. Clininal significance of pancreas divisum. *Acta Gastroenterol Belg* 1992;55:306-313.
2. Burtin P, Person B, Charneau J, Boyer J. Pancreas divisum and pancreatitis: a coincidental association. *Endoscopy* 1991;

- 23:55-58.
3. Kasugai T, Kuno N, Kobayashi S, Hattori K. Endoscopic pancreatocholangiopathy. I. The normal endoscopic pancreatocholangiogram. *Gastroenterology* 1972;63:217-226.
4. Staritz M, Meyer zum Buschenfelde KH. Elevated pressure in the dorsal part of pancreas divisum. *Pancreas* 1988;3:245-247.
5. Forbes A, Leung JW, Cotton PB. Relapsing acute and chronic pancreatitis. *Arch Dis Child* 1984;59:927-934.
6. Delhaye M, Engelholm L, Cremer M. Pancreas divisum: congenital anatomic variant or anomaly? Contribution of endoscopic retrograde dorsal pancreatography. *Gastroenterology* 1985;89:951-958.
7. Hayakawa T, Kondo T, Shibata T, et al. Pancreas divisum: a predisposing factor to pancreatitis? *Int J Pancreatol* 1989;5:317-326.
8. Mitchell CJ, Lintott DJ, Ruddell WSJ, Losowsky MS, Axon ATR. Clinical relevance of an unfused duct system. *Gut* 1979;20:1066-1071.
9. Cotton PB. Duodenoscopic papillotomy at the minor papilla for recurrent dorsal pancreatitis. *Endoscop Digest* 1979;3:27-28.
10. Lehman GA, Sherman S, Nisi R, Hawes RH. Pancreas divisum: results of minor papilla sphinterotomy. *Gastrointest Endosc* 1993;39:1-8.
11. Satterfield ST, McCarthy JH, Geenen JE, et al. Clinical experience in 82 patients with pancreas divisum: preliminary results of manometry and endoscopic therapy. *Pancreas* 1988;3:248-253.
12. Lans JJ, Geenen JE, Johanson JF, Hogan WJ. Endoscopic therapy in patients with pancreas divisum and acute pancreatitis: a prospective, randomized, controlled clinical trial. *Gastrointest Endosc* 1992;38:430-434.
13. Kang JK, Park IS, Moon YM, et al. Analysis of 45 cases of anomalous pancreaticobiliary ductal union. *Korean J Gastroenterol* 1998;31:814-821.
14. Moon JH, Kim BS, Heo J, et al. A case of an anomalous union of the pancreaticobiliary duct associated with incomplete pancreas divisum. *Korean J Intern Med* 2003;64:468-472.