

심한 방광 요관 역류를 동반한 양측성 Hutch's Diverticulum 1례

을지의과대학병원 소아과학교실, 진단방사선과학교실*, 비뇨기과학교실**

신 종수 · 전 유식 · 나 창수 · 정 건영* · 염 규영**

서 론

방광계실은 방광 점막이 방광벽 근육층으로 밀려 들어갈 때 발생되는데 1614년 부검에서 최초로 보고 되었다¹. 원인별로 선천성과 후천성으로 분류²되며 방광의 어느 부위에서나 나타날 수 있다. 선천성 방광계실은 요로폐색이 없고 방광벽이 매끈한 경우에 흔히 나타나며 단일성으로 발생되는데 방광근의 유전적 악화가 계실의 원인으로 되어있다. 방광계실의 호발위치는 잠재적으로 방광의 약한 부위인 요관열공(ureteral hiatus)에서 선천성 혹은 후천성 계실이 가장 흔히 발생된다^{3,4}.

특히 요관열공(ureteral hiatus) 근처가 기시부로 되어있는 것을 부요관 계실(paraureteral diverticulum) 또는 Hutch's 계실이라 불리는데 선천성 부요관계실의 98% 이상이 남아에 호발한다⁵. 저자들은 출생후 특별한 문제없이 자내다가 빈뇨와 배뇨통을 주소로 입원하여 단순복부촬영과 배뇨중 방광요도조영술(voiding cystourethrogram, VCUG), 복부컴퓨터 단층촬영상 심한 방광뇨관 역류를 동반한 양측성 Hutch's 계실로 진단받고 수술하여 호전된 환아를 경험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환아 : 김 00, 23개월 남아.

주 소 : 빈뇨와 배뇨통

과거력 : 재태기간 39주, 출생체중 3.2kg, 제왕절개 분만한 둘째 아이.

임신기간과 분만 과정상 특기할 만한 사항은 없었고 이후 발달은 정상적이었다.

가족력 : 특이사항 없음.

현병력 : 환아는 출생이후 특별한 문제없이 자내된중 내원 수 개월 전부터 빈뇨와 함께 배뇨통을 호소하였으나 특별한 치료를 받지 않다가 내원 1주일 전부터 구강섭취가 불량해지면서 미열과 배뇨의 횟수

가 늘어나면서 배뇨시 통증을 호소하여 개인 비뇨기과를 방문, 치료받았으나 별다른 증세의 호전이 없었고 치료 일주일만에 다른 개인 비뇨기과로 옮겨 복부 초음파를 시행한 결과 하복부에 낭성 종양이 의심된다고 하여 종합병원 치료를 권유받고 본원 외래를 통하여 입원하였다.

이학적 소견 : 입원당시 체중 13 kg(3-10 배분위수), 신장 85 cm(10-25 배분위수), 흥위 51 cm(90-97 배분위수), 두위 47.5 cm(90-97 배분위수)였고, 체온 38.5°C, 호흡수 28회/분, 심박수 140회/분, 혈압은 90/60 mmHg 이었다. 환아의 전신상태는 양호하였고 흥부소견상 특별한 이상은 없었으며, 복부팽만이 관찰되었으나 부드러웠고 정상적인 장음을 청진할 수 있었고 간비종대는 없었으며, 만져지는 복부종괴도 없었다.

검사소견 : 혈액학적 검사상 혈색소 10.5 g/dL, 헤마토크리트 31.9%, 배혈구 20,060/mm³(증성구 84%, 림프구 11%, 단핵구 5%), 혈소판 379,000/mm³ 이었고 c-반응단백(CRP) 9.2 mg/dL, 생화학 검사상 혈액 요소질소 17 mg/dL, 크레아티닌 0.6 mg/dL, 전해질 검사소견은 Na 133 mEq/L, K 4.4 mEq/L, Cl 95 mEq/L 이었다. 소변검사상 요비중 1.010, pH 7.0, 적혈구 5-18/HPF, 백혈구 many/HPF, 뇨단백 음성, 소변배양 검사상 E coli 집락수가 10%/mL 이상이었다.



Fig. 1. Abdominal CT shows bilateral Hutch's diverticulum

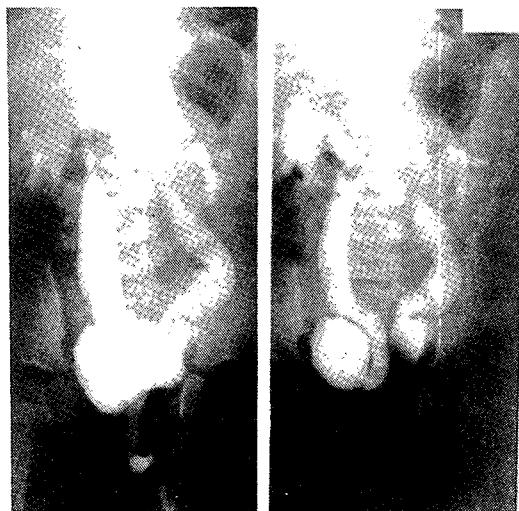


Fig. 2. Voiding Cystoureogram shows bilateral Hutch's diverticula associated grade-V reflux bilaterally.



Fig. 3. Postoperative cystogram shows normal bladder contour and, there is no more vesicoureteral reflux.

방사선 소견 : 단순복부촬영상 장이 우상방으로 전위되어 있고, 복부초음파와 복부컴퓨터 단층촬영상 양측 수신증과 요관 확장, 방광계실을 진단 받았으며(Fig.1), 배뇨중 방광요도 조영술(VCUG)상 양측에서 grade V정도의 심한 방광요관 역류와 함께 Hutch's계실을 진단 받았다(Fig.2). 입원 제 5병일에 시행된 DMSA scan상 양측 신피질의 섭위율이 일부에서 감소되어 있었다.

입원후경과 : 환아는 입원하여 진단에 필요한 모든 검사를 받았으며, 입원 제 21병일에 비뇨기과로 전과되어 요관방광문합술(ureteroneocystostomy)을 시행받은 후 술후 1일째 혈압이 130/90 mmHg으로 고혈압이 있으면서 치골상부 방광 천자 카테터를 통한 요배출이 감소되어 항고혈압제의 투여와 함께 양측에 percutaneous nephrostomy(PCN)를 시행하여 좌우측에서 각각 60mL와 100mL의 요를 배출시켜 혈압이 안정되었으며, 술후 15일째에 시행한 배설성요로조영술(IVP)상 요관에서 방광으로 요배출이 잘되어 PCN을 제거하였다. 술후 16일째에 방광천자 카테터를 통한 VCUG상 방광요관 역류는 관찰되지 않았으며(Fig.3), 술후 17일째에 자가배뇨를 하였고 이날 방광천자 카테터를 제거하였다. 이후 환아의 건강은 양호한 상태로 퇴원하여 현재 외래에서 추적 관찰중에 특별한 이상없이 잘 지내고있다.

고 찰

방광 계실과 방광류는 해부학적으로 동일하지만, 배설성요로조영술(IVP)이나 배뇨중 방광요도조영술(VCUG)상 배뇨후 필름에서 계실은 직경이 2 cm이상인 반면에 방광류는 2 cm 미만이다^{5,6)}.

방광계실은 방광벽의 근육을 통하여 일부의 방광근육과 외막(adventitia)을 포함한 방광점막이 탈출하면서 형성되어지는데 원인별로 선천성과 후천성으로 분류된다²⁾. 선천성 방광계실의 원인은 방광근의 유전적 약화이며 후천성 방광계실은 방광내압 상승을 유발시키는 방광출구의 폐쇄나 신경인성 방광(neurogenic bladder)으로 인하여 발생될 수 있다⁷⁾. 소아에서 선천성 방광계실의 호발 위치는 요관열공(ureteral hiatus)부위인데 이는 방광요관 입구부위의 근섬유(Waldeyer's sheath) 발달 과정의 결손과 관련 있다⁸⁾. 또한 후요도 판박증등의 방광 출구 폐쇄나 말린자두증후군(prunebelly syndrome)과 동반하여 방광의 둘에 호발한다⁹⁾.

선천성 방광계실과 동반되는 질환에는 Williams syndrome, Menkes syndrome, 말린자두증후군(prunebelly syndrome), Ehlers-Danlos syndrome, 태아 알코올 중후군등이 있다^{7,9)}. 선천성 방광계실의 발생은 남아에서 여아보다 높은 것으로 되어있다¹⁰⁾. 선천성 방광계실은 근육층이 결여되어 있으므로 수축력이 없고 잔뇨가 남게되어 요로 감염원이 되고, 방광요관역류, 요관폐색, 요폐(urinary retention), 요로결석형성 및

악성 종양발생등의 합병증을 유발할 수 있는데 이러한 합병증이 없는 경우에는 증세가 없을 수 있다^{7,11,12)}.

대부분의 선천성 방광계실은 요로 감염에 대한 검사중에 진단되는 경우가 제일 많으며, 요관열공(ureteral hiatus)부위를 침범하는 부요관계실(Hutch's paraureteral diverticulum)인 경우에 동측의 방광요관 역류를 일으킬 수 있는데, 방광점막하로 이행되는 요관이 얼마나 침범되는가에 따라서 역류의 유무가 결정된다¹³⁾.

진단으로 배설성 요로조영술에서 보이는 경우는 매우 드물고 배뇨중 방광요도조영술의 배뇨기에 증명하는 것이 제일 좋으며 컴퓨터 단층촬영을 시행할 수도 있다. 복부 초음파가 도움이 될 수 있는데 배뇨전과 배뇨후 검사가 필요하며 확진을 위해서 방광경 검사가 필요하다.

선천성 방광계실의 감별진단으로 6세 이하의 남아에서 서혜관(inguinal canal) 앞쪽으로 돌출되어 방광의 일시적인 낭을 형성하는 bladder ear라 불리는 구조물이 있는데 이는 정상적인 소견이며 여아에서 요관입구(ureteral orifice)의 후측부위가 해부학적으로 근육층이 얕아 배뇨중 방광 바깥부위로 돌출되어 낭이 생길 수 있는데 정상적인 구조물이다⁵⁾. 방광요관 역류를 초래하지 않고 우연히 발견된 방광계실은 치료하지 않으나, 요관열공(ureteral hiatus)을 침범하여 방광요관 역류를 초래하는 선천성 방광계실은 계실의 절제뿐만 아니라 요관재문합의 적응증이 되며 커다란 계실은 감염과 폐쇄의 원인이 되므로 제거하여야 한다⁸⁾. 방광계실 환자의 2-10%에서 암이 발생할 수 있는데 65세에서 최고 발병율을 보인다^{8,14,15)}. 따라서 많은 의과의사들은 예방적인 조기 방광계실 제거술을 주장한다.

결 론

저자들은 출생후 특별한 문제없이 지내다가 빈뇨와 배뇨통을 주소로 입원하여 단순복부촬영과 복부초음파, 배뇨중 방광요도조영술(VCUG), 복부컴퓨터 단층촬영상 심한 방광요관 역류를 동반한 양측성 Hutch's 계실로 진단받고 수술하여 호전된 환아를 경험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고 문헌

- 1) Caldamone AA: *Adult and Pediatric Urology*. 2nd ed. St Louis, Mosby company, 1991, p2023-2053
- 2) Hofmann R, Hegemann M, Mauermayer W, Endres M: *Hereditary autosomal dominant form of bladder diverticula in male patients*. J Urol 131:338-339, 1984
- 3) Bauer SB, Retik AB: *Bladder diverticulum in infants and children*. Urology 3:712-715, 1974
- 4) Stephens FD: *The vesicoureteral hiatus and paraureteral diverticula*. J Urol 121:786-791, 1979
- 5) Howard MP: *Clinical urography*. 1st ed. Philadelphia, W.B. Saunders company, 1990, p733-735
- 6) Vlatkovic G, Batinic D, Bradic I, Boranic M, Feminic R: *Bladder diverticula in children*. Int J Pediatr Nephrol 3:229-233, 1982
- 7) Blane CE, Zerin JM, Bloom DA: *Bladder diverticula in children*. Radiology 190:695-697, 1994
- 8) Jay Y, John T: *Adult and Pediatric urology*. 3rd ed. Philadelphia, W.B. Saunders company, 1996, p887-888
- 9) Daly WJ, Rabinovitch HH: *Urologic abnormalities in Menkes' syndrome*. J Urol 126:262-264, 1981
- 10) Egilmez AN, Sigel A, Wilhelm E: *Bladder diverticulum, a congenital disease of children and adults*. Urology 21:335-344, 1982
- 11) Jarron JP, Brendler CB: *Urinary retention caused by a large bladder diverticulum*. J Urol 139:1260-1263, 1988
- 12) Epstein ES, Siegel MJ, Manley CB: *Acute urinary retention caused by vesical diverticula*. Urol Radiol 4:263-265, 1982
- 13) Brock WA, Kaplan GW: *Abnormalities of the lower urinary tract*. In *Pediatric kidney Disease*. 2nd ed. Boston, Little Brown company, 1992, p2037-2040
- 14) Faysal MH, Freha FS: *Primary neoplasm in vesical diverticula: a report of 12 cases*. Br J Urol 53:141-143, 1981
- 15) Micic S, Illic V: *Incidence of neoplasm in vesical diverticula*. J Urol 129:734-735, 1983

= Abstract =

A Case of Hutch's Diverticulum Associated with Severe Bilateral Vesicoureteral Reflux

Jong Su Shin, M.D., Yu Sik Jeon, M.D., Chang Soo Ra, M.D.,
Gun Young Jeong, M.D.* Gyu Young Yeum, M.D.**

Department of Pediatrics, Department of Diagnostic Radiology,
Department of Urology** Eulji Medical college, Taejon, Korea*

A bladder diverticulum occurs when the bladder mucosa herniates or protrudes through the muscular wall of the bladder. The majority of congenital bladder diverticula occurs in males. They are the most common in the region of the bladder base, most frequently in the region of the ureteral hiatus, in which case they are known as Hutch's diverticula. They can give rise to obstruction or reflux.

We had experienced a case of bilateral Hutch's diverticulum associated with vesicoureteral reflux in a 23 month old male. Chief complaints were urinary frequency and dysuria. Voiding cystoureogram and CT scan revealed large bilateral Hutch's diverticulum with bilateral vesicoureteral reflux grade V. There was evidence of urinary infection. This patient was successfully treated by ureteroneocystostomy. We report this case with a brief review of related literatures. (J Korean Soc of Pediatr Nephrol 2:86-89, 1998)

Key Words : Hutch's diverticulum, Vesicoureteral reflux