

반복성 복통으로 발현된 복성 간질 1예

계명대학교 의과대학 소아과학교실

송 정 윤 · 김 준 식 · 황 진 복

A Case of Abdominal Epilepsy Presenting with Recurrent Abdominal Pain

Jeong-Yoon Song, M.D., Jun Sik Kim, M.D. and Jin-Bok Hwang, M.D.

Department of Pediatrics, Keimyung University School of Medicine, Daegu, Korea

Abdominal epilepsy is an uncommon disorder and a rare cause of recurrent abdominal pain of children. Diagnostic criteria of this disorder include otherwise unexplained, paroxysmal gastrointestinal complaints, symptoms of a central nerve system disturbance, an abnormal electroencephalogram with a finding specific for a seizure disorder, and improvement with anticonvulsant medication. We present a case of a 6-year-old boy with abdominal epilepsy presenting with recurrent, paroxysmal abdominal pain for 4 years. This patient had definite electroencephalogram abnormalities and a striking response to administration of an anticonvulsant. (*Korean J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2007; 10: 202~205)

Key Words: Abdominal epilepsy, Recurrent abdominal pain, Child

서 론

소아 반복성 복통의 기질적 원인 질환 중 하나로 알려진 복성 간질(abdominal epilepsy)은 임상에서 흔히 사용하는 친숙한 용어이다. 그러나 철저한 진단 기준을 바탕으로 명확히 진단되는 복성 간질은 드물어 Zinkin과 Peppercorn¹⁾은 지난 34년간 발표된 문헌을 확인하여 본 바 36예만이 복성 간질의 진단적 가치가 있다고 보

고한 바 있으며, 이들 중 소아 청소년은 불과 17예를 차지하였다.

복성 간질의 진단 기준²⁾은 충분한 진단적 검사를 시행하여도 원인을 알 수 없는 발작적인 위장관 증상이 있을 것, 중추 신경계의 이상 증상을 보일 것, 뇌파 검사상 간질성 이상 소견을 보일 것, 항경련제를 사용하여 증상의 소실이 극적으로 나타나고 지속될 것의 4가지 임상 조건을 만족하는 것이다.

한편, 소아 반복성 복통의 주요 기능성 질환³⁾인 주기성 구토증이나 복성 편두통(abdominal migraine)은 복성 간질과 함께 공통의 병리 기전을 공유하고 있는 것이 아닐까 추정되고 있다⁴⁾. 특히, 복성 간질과 임상적으로 감별 진단이 쉽지 않은 복성 편두통은 소아의 1~4%, 소아 소화기 분과 진료실을 방문하는 소아의 2.2~5%

접수 : 2007년 7월 31일, 승인 : 2007년 8월 30일
책임저자 : 황진복, 700-712, 대구시 중구 동산동 194번지
계명대학교 의과대학 소아과학교실
Tel: 053-250-7331, Fax: 053-250-7783
E-mail: pedgi@korea.com

를 차지할 정도로 드물지 않은 질환이다³⁾. 실제 임상에서 신경학적 이상 소견을 동반하는 만성 복통 환자들은 소아소화기학 분과에서는 진단적 접근이 쉽지 않을 수 있어 이러한 질병의 특성에 대하여 보다 충분한 지식과 경험이 필요할 것으로 판단된다.

저자들은 약 4년간 반복성 복통을 보인 6세 남아에서 타 기질적 원인 질환들이 배제되고 진단 기준²⁾을 만족하여 확진된 복성 간질 1예를 소개하고, 복성 간질의 임상적 특성과 함께 복성 편두통과의 감별법 등을 문헌 고찰을 통하여 보고하는 바이다.

증 례

환 아: 김○○, 남아, 6세
주 소: 반복성 복통의 원인을 밝히기 위하여 타병원에서 전원
현병력: 내원 4년여 전 반복적인 복통이 한달에 약 10회 가량 발생하였다. 복통은 주로 야간에 발생하였고, 괴성을 지를 정도로 발작적이었으며, 증상 기간은 대개 5분 정도였다. 복통 발생이 있을 때 구토나 설사, 열은 동반되지 않았고, 증상 발현 후 수면(post-ictal sleep), 의식 소실은 보이지 않았다. 배변 중 간헐적인 통증과 혈변이 있어 만성 변비에 의한 복통으로 추정하고 여러 병원, 의원에서 진료 받은 병력이 있었으나 증상의 변화는 없었다. 내원 8개월여 전부터 복통은 보다 잦아져 한달에 약 20~25회의 증상 발현이 있었고, 복통의 강도도 보다 악화되는 소견을 보였다. 이 무렵부터는 복통 발현 중 심한 두통과 구역을 호소하였다. 구토나 설사 등은 동반되지 않았고, 통증 후 수면이나 의식 소실도 관찰되지 않았다. 타 병원에서 진료 중 반복성 복통에 대한 원인을 규명하고자 본원으로 전원 되었다. 병력 청취를 시행하여 증상 발현 중 엉뚱한 곳을 응시하거나, 시야 장애, 자동증(automatisms), 이상한 냄새, 사지의 감각 이상을 호소하거나, 소변을 보거나, 식은땀, 과호흡을 보이는 등의 발작 병력은 관찰되지 않았다.

과거력 및 가족력: 정상 출생 이후 특기할 질병의 과거력은 관찰되지 않았으며, 경련성 질환, 발달 장애 등의 병력도 없었다. 가족력에서 경련성 질환이나 편두통의 병력은 관찰되지 않았다.

이학적 소견: 환아는 체중 22.6 kg (50~75 백분위수), 신장 118 cm (25~50 백분위수)로 영양학적으로 건강하게 보였으며, 활발하였으며, 발달 이상, 정신지체 등의 소견이 관찰되지는 않았다. 활력 징후는 혈압 104/55 mmHg, 심박수 88/분, 호흡수 22/분, 체온 36.5°C 이었다. 신체 검사에서 심장과 폐는 정상적인 진찰 소견을 보였고, 복부도 압통, 종물 등 특기할 이상 소견을 발견할 수는 없었다. 신경학적 검사에서도 이상 소견은 관찰되지 않았다.

검사 소견: 말초 혈액 도말검사에서 혈색소 14.1 g/dL, 백혈구수 6,650/mm³ (호중구 32.8%, 림프구 54.6%), 혈소판수 403,000/mm³이었으며, 소변 검사, 대변 도말 검사, 전해질 검사, 신장 기능 검사, 간기능 검사는 정상 소견을 보였으며, CRP는 0.09 mg/dL이었다. 아밀라제와 리파제는 55 U/L, 28 U/L로 정상 범위에 속하였다. 흉부, 복부 방사선 검사와 심전도 검사도 정상 소견을 보였다. 만성 복통에 대한 추가 검사로 혈중 납 수치와 혈중 및 24시간 소변 포르피린증 검사를 시행하였으나 정상이었다.

방사선 검사 및 내시경 검사 소견: 반복성 복통의 추가적인 평가를 위하여 시행된, 복부 초음파 검사와 복부 컴퓨터 단층 촬영에서 배꼽 부위 주변의 작은 크기의 림프절 비대 이외에는 특기할 이상 소견이 관찰되지 않았다. 상부 위장관 내시경검사에서도 특기할 소견이 관찰되지 않았고, 바륨을 이용한 상부 위장관 조영술 및 소장 조영술 상에서도 특기할 이상 소견을 확인할 수 없었다. 최근에 발생한 두통에 대하여 뇌 MRI 검사를 시행하였으나 정상 범위의 소견이었다.

뇌파 검사: 최근 복통을 호소할 때 신경학적 이상으로 두통을 뚜렷이 보이는 점과 발작적인 만성 복통의 원인으로 드물기는 하나 복성 간질을 배제하고자 뇌파 검사를 시행하였으며, 검사 당시에는 증상 발현이 없는 상태였다. 뇌파 검사에서 전반적인 극파(generalized spikes)(Fig. 1A)와 우측 측두부 극파(temporal spikes)(Fig. 1B)가 관찰되어 뚜렷한 간질성 뇌파 소견이 관찰되었다.

치료 및 경과: 철저한 감별 진단에도 불구하고 반복성 복통에 대한 타 기질적 질환을 발견할 수 없었고, 짧은 기간의 반복되는, 발작적 복통을 보이며, 뇌파 검사에서 뚜렷한 이상 소견을 보이는 점을 종합하여 복성



Fig. 1. (A) This electroencephalogram shows generalized spike and wave discharges. The slow wave that follows the spike is short-lived. (B) This shows focal small spikes with phase reversal at T6 (arrow).

간질을 강력히 의심하여, 항경련제를 투여하여 반응을 보기로 결정하였다. 항경련제는 oxcarbazepine (Tri-leptal[®], Novartis Korea, Korea)을 사용하였으며, 투여 약 3일 경부터 증상의 극적인 호전이 관찰되기 시작하였고, 투여 약 1주일 후 증상의 완전한 소실이 관찰되었다. 진단 기준²⁾을 이용하여 복성 간질로 확진하였으며, 약 3개월의 약물 투여 동안 증상의 발현은 관찰되지 않았으며, 약물에 의한 특기할 부작용도 관찰되지 않았다. 추적 뇌파 검사와 약물 투여를 진행하면서 추적 관찰 중이다.

고 찰

본 증례는 일반적인 복성 간질의 증례들¹⁾이나 최근 국내에서 보고된 14세 남아의 증례⁵⁾와 달리, 과호흡, 의식 소실, 증상 발현 후 수면 등의 뚜렷한 신경학적 이상 소견을 보이지 않았고, 최근 신경학적 증상으로 두통과 구역이 동반되기는 하였으나 발작적이고 반복적인 복통을 주 증상으로 보이다가 복성 간질로 진단된 독특한 임상 경과를 보인 증례이다.

최근 Dutta 등⁶⁾은 반복성 복통의 드문 원인으로서는 성인과 소아 각각 2예에서 복성 간질을 증례 보고한 바 있다. 15세, 13세의 소아는 각각 12년, 8년 동안의 장기간의 증상 발현 기간을 보여 복성 간질이 임상적으로 간과되고 있을 가능성을 시사한 바 있다. 본 증례에서

도 약 4년 여 동안 밤잠을 이루지 못하고, 괴성을 지르며, 펄쩍 펄쩍 뛰면서 울 정도의 복통을 호소하여 여러 병원을 방문하였으나 진단되지 못하여, 환자는 물론 가족의 삶의 질 저하와 불안감이 극도로 높아진 임상 상황이었다. 따라서 반복성 복통을 흔히 접하는 소아소화기 분과의 의사들은 극히 드물기는 하나 복성 간질의 가능성을 감별 진단의 목록에 반드시 두어야 하며, 타 질환과의 감별을 위한 독특한 임상적 속성을 알고 있어야 하며¹⁾, 특히 본 증례처럼 의식 소실 등 전형적인 전조(aura) 증상이 뚜렷하지 않더라도 복성 간질을 염두에 둘 필요가 있을 것으로 판단된다.

Zinkin과 Peppercom¹⁾가 보고한 36례의 복성 간질의 임상 분석을 살펴보면, 여자가 53%를 차지하였으며, 연령은 1세에서 66세까지 전 연령층에서 관찰되었다. 복통이 86%에서 관찰되었고 대부분 본 증례처럼 발작적인 선통(colic)의 양상을 보였으며, 구역과 구토가 28%, 설사가 5%에서 관찰되었다. 복통의 위치는 대부분 본 증례처럼 배꼽 주위에서 발생하였다. 위장관 이외의 증상과 신경학적 증상은 본 증례에서는 관찰되지 않았으나 피곤과 의식의 변화가 64%로 가장 많이 관찰되었으며, 윤 등⁵⁾의 증례 보고처럼 증상 발현 후 수면이 나타나는 경우가 36%에서 관찰되었다. 본 증례처럼 두통이 뚜렷이 관찰된 경우는 14%로 분석되었다. 증상 발현 기간은 대개 수분 이내의 짧은 시간 동안 발생하는 것이 특징으로 관찰되어 본 증례에서의 증상 발현

기간과 일치하였다.

복성 간질과의 감별 진단에는 포르피린증, 주기성 구토증, 복성 편두통 등이 있다¹⁾. 특히 임상적으로 복성 편두통과의 감별이 쉽지 않은 것으로 알려져 있으며, 복성 간질에 비하여 복성 편두통은 상대적으로 흔하며 가족력이 대부분에서 관찰되고, 통증의 양상이 둔통(dull)이며, 증상 발현 기간이 보다 길어 대개 1시간에서 1~2일의 기간을 보인다¹⁾. 특히 뇌파 검사의 뚜렷한 간질성 이상 소견이나 항경련제에 극적인 치료 반응을 보이는 경우는 복성 편두통의 특징적인 소견이 아니며 복성 간질을 암시하여 주는 중요한 임상적 특성이다^{1,5)}. 특히, 측두엽 간질(temporal lobe epilepsy)에서 복통, 구토, 오심 등 위장관 증상이 간질 발작의 전구 증상으로 흔히 발생하는 것으로 알려져 있어⁷⁾ 복성 간질과의 병리적 차이와 두 질환이 간질 분류에서 차지하는 위치에 대하여 향후 연구가 필요하리라 판단된다.

Franzon 등⁸⁾은 반복성 복통을 보이는 소아에서 복성 간질의 진단적 기준을 만족하면서도 뇌종양과 합병성 편두통으로 진단된 증례를 소개하면서, 기질적 타 질환이 완전히 배제되지 않는 임상 상황에서 복성 간질을 쉽게 진단하지 말 것을 권고한 바 있다. 본 증례에서도 반복성 복통 및 동반 두통의 기질적 원인을 규명하고자 방대한 진단적 검사를 시행하였으나 특기할 이상 소견이 없고, 이때 복성 간질의 진단적 기준을 만족하고 항경련제 사용에 극적이고 완전한 증상 소실을 보여 확진된 증례이다. 따라서 복성 간질의 진단적 기준을 만족하는 반복성 복통 환자에서도 뇌종양 등 타 기질적 질환에 대한 충실한 배제가 이루어져 신중한 진단적 접근이 필요할 것으로 판단된다.

복성 간질은 임상에서 흔히 사용하는 용어의 친숙도에 비하여 드문 질환이며¹⁾, 경련성 발작을 보이지는 않으나 간질에 의한 위장관 증상으로 복통이 유발되는 질환이다⁵⁾. 복통의 양상이 짧은 기간 동안의 발작적인 반복성 복통을 보일 때 의심하여 볼 수 있다. 특히 본 증례에서는 두통 이외에는 특기할 소견이 관찰되지는 않았으나, 일반적인 복성 간질은 의식 소실 등 신경학적 이상 소견을 동반하는 경우가 흔하기 때문에 특히 병력 청취시 이점을 염두에 두어야 한다¹⁾. 그러나 명확한 진단적 검사 도구 없이 임상적 증상을 근거로 진단이 이

루어지는, 소아 반복성 복통의 보다 흔한 원인 질환인 복성 편두통과의 감별에 주의하여야 하며⁸⁾, 감별시 객관적 진단 도구로 중요한 뇌파 검사를 실시하여 확진을 유도할 수 있다. 예후는 비교적 좋은 것으로 알려져 있으며, 항경련제의 사용으로 증상의 극적이고 완전한 소실을 보이는 것이 임상적 특성이며, 중요한 진단적 기준이다^{1,5)}.

요 약

저자들은 6세 된 남아에서 4년간의 반복적이고, 발작적인 복통의 원인을 규명하던 중 만성 복통의 타 기질적 질환들이 배제되고, 뇌파 검사의 이상 소견과 함께 항경련제의 사용에 증상의 극적인 소실을 보여 복성 간질로 진단된 1예를 경험하고 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Zinkin NT, Peppercorn MA. Abdominal epilepsy. Best Pract Res Clin Gastroenterol 2005;19:263-74.
- 2) Peppercorn MA, Herzog AG. The spectrum of abdominal epilepsy in adults. Am J Gastroenterol 1989;84:1294-6.
- 3) Rasquin A, Di Lorenzo C, Forbes D, Guiraldes E, Hyams JS, Staiano A, et al. Childhood functional gastrointestinal disorders: child/adolescent. Gastroenterology 2006;130:1527-37.
- 4) Cupini LM, Santorelli FM, Iani C, Fariello G, Calabresi P. Cyclic vomiting syndrome, migraine, and epilepsy: a common underlying disorder? Headache 2003;43:407-9.
- 5) 윤영아, 조선영, 이경일, 이인구, 이준성. 24시간 뇌파 감시로 진단된 복성 간질 1례. 대한소아신경학회지 2006;14:337-41.
- 6) Dutta SR, Hazarika I, Chakravarty BP. Abdominal epilepsy, an uncommon cause of recurrent abdominal pain: a brief report. Gut 2007;56:438-41.
- 7) Nair DR, Najm I, Bulacio J, Lüders H. Painful auras in focal epilepsy. Neurology 2001;57:700-2.
- 8) Franzon RC, Lopes CF, Schmutzler KMR, Morais MIR, Guerreiro MM. Recurrent abdominal pain. When an epileptic seizure should be suspected? Arq Neuropsiquiatr 2002;60:628-30.