

COMPARISON OF PRENATALLY DIAGNOSED FETAL CONGENITAL CYSTIC ADENOMATOID MALFORMATION AND BRONCHOPULMONARY SEQUESTRATION

Ju Hyun Ryu, MD, Hyun-Hwa Cha, MD, Suk-Joo Choi, MD, Soo-Young Oh, MD, Cheong-Rae Roh, MD, Jong-Hwa Kim, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea

Objective

This study is to investigate and compare the pregnancy outcomes and prognostic factors of congenital cystic adenomatoid malformation (CCAM) and bronchopulmonary sequestration (BPS).

Methods

From May 2005 to September 2010, fifty-five medical records of fetuses with prenatally diagnosed CCAM (42 cases) and BPS (13 cases) were reviewed retrospectively in Samsung Medical Center (SMC). We compared the demographic characteristics, sonographic findings, postnatal diagnoses and pregnancy outcomes between CCAM and BPS. The sonographic findings included the locations of lesion, changes of size, existences of mediastinal shift, associated anomalies and existences of hydrops. Postnatal diagnoses were confirmed by pathologic findings and image examinations.

Results

A total of fifty-five cases were prenatally diagnosed as CCAM (42 cases) and BPS (13 cases). Thirty cases were followed up in SMC. Three of the thirty cases underwent termination and one case was intrauterine fetal death. Twenty-six cases were delivered alive in SMC. The masses were found out to be disappeared by prenatal sonography in four cases (15.4%) who were antenatally diagnosed as CCAM. The sizes of the mass were decreased more than 50% in CCAM seven cases and BPS three cases. The absence of mediastinal shift ($P=0.019$) was significantly correlated with the decrease of mass size.

Conclusion

The concordance rate between antenatal and postnatal diagnosis was 63.0%. There was a tendency of decreasing in lesion with most of the cases. Without mediastinal shift, the mass size decreased significantly. So, existence of mediastinal shift is the most important prognostic factor of CCAM and BPS.

Keywords: Congenital cystic adenomatoid malformation of lung; Bronchopulmonary sequestration; Prenatal diagnosis; Pregnancy outcome

산전초음파의 발달로 태아 폐종양의 진단율이 높아지고 있다. 산전초음파에서 태아의 폐종양으로 진단될 수 있는 질환으로는 선천성고기관지폐쇄증후군(congenital high airway obstruction syndrome, CHAOS), 기관지폐분리증(bronchopulmonary sequestration, BPS), 선천성낭성샘모양기형(congenital cystic adenomatoid malformation, CCAM) 등이 있으며, 가장 흔한 질환은 선천성낭성샘모양기형과 기관지폐분리증이다. 선천성낭성샘모양기형은 폐의 발달과정 이상에 의해 생성되는 선천성 기형으로, 말단 세기관지(terminal bronchiole)의 과성장을 특징으로 한다. 발생 빈도는 35,000명당 1명에서 11,000명당 1명까지 다양하게 보고되며[1-6] 삼성서울병원에서의 최근 5년간 발생률은 0.15%로 조사

Received: 2011. 4.27. Accepted: 2011. 5.30.

Corresponding author: Jong-Hwa Kim, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine, 50 Ilwon-dong, Gangnam-gu, Seoul 135-710, Korea

Tel: +82-2-3410-1974 Fax: +82-2-3410-0630

E-mail: jh369.kim@samsung.com

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2011. Korean Society of Obstetrics and Gynecology

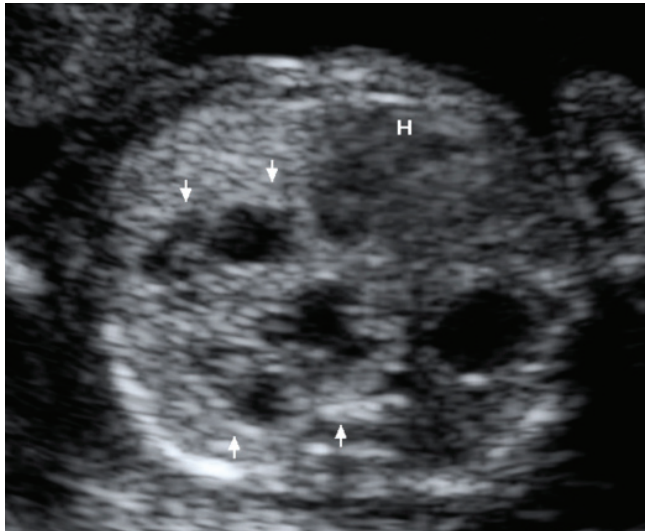


Fig. 1. Transverse sonogram of the fetal chest shows a multicystic lung mass of congenital cystic adenomatoid malformation (white arrow). H, heart.

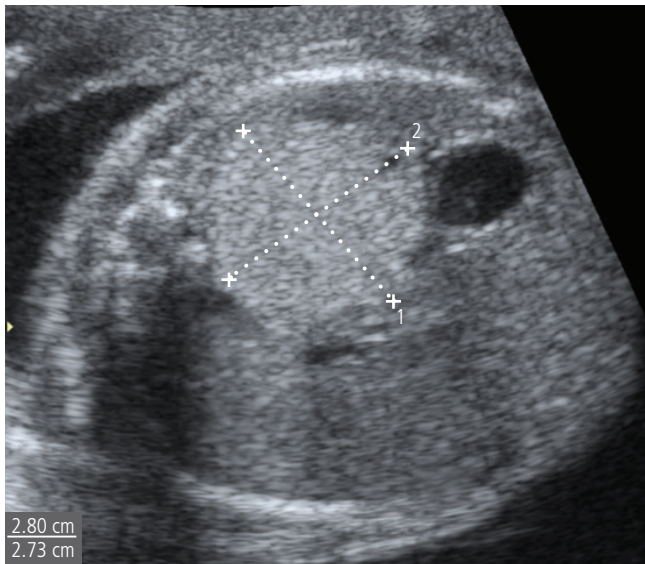


Fig. 2. Transverse sonogram of the fetal chest shows an echogenic lung mass of bronchopulmonary sequestration (white dotted line).

되었다. 주로 임신 이삼분기에 초음파검사에서 다수의 낭종 소견으로 발견되며(Fig. 1) 생존율이 95%까지 보고되어 비교적 예후가 좋은 질환이다. 기관지폐분리증은 정상적인 폐와 분리되어 있는 비기능성 폐 조직이, 호흡기계와 교통하지 않으면서 체순환계로부터 혈액 공급을 받는 선천성 기형이며 초음파에서 흉강내 고에코성 덩어리의 소견으로 관찰된다(Fig. 2). 발생 빈도는 50,000명당 1명 이하로 보고되고[1-6] 삼성서울병원의 최근 5년간 발생률은 0.07%였다.

최근 보고된 연구에 의하면 선천성낭성샘모양기형과 기관지폐분리증은 자궁내 자연소실률이 43-86%이며, 자연 소실된 경우에서 예후는 좋

다고 하였다[7].

저자들이 조사한 결과에 의하면 전 세계적으로 선천성 폐종양의 산전연구 대부분에서, 증례의 수는 30예 미만이었으며, 30예 이상의 증례를 보고한 연구는 8개에 불과하다[8]. 본 연구에서는 산전초음파를 통하여 선천성낭성샘모양기형 또는 기관지폐분리증으로 진단된 55예 중 30예를 추적 관찰하여 임신결과를 비교하였고 병변의 크기 감소에 영향을 미치는 예후인자를 제시하고자 하였다.

연구대상 및 방법

2005년 5월부터 2010년 9월까지 삼성서울병원에서 산전초음파를 통해 선천성낭성샘모양기형 또는 기관지폐분리증으로 진단된 55예를 대상으로 임신부 및 신생아의 임상기록을 조사하여 후향적 연구를 시행하였다. 55예 중 30예는 본원에서 추적관찰이 이루어졌으며, 27예는 임신을 유지하였고, 3예는 임신중절을 시행하였다. 임신부의 특성은 나이, 산과력, 진단 당시의 임신 주수에 대해 기술하였고 산전초음파 소견은 추정진단, 종격동 이동 여부, 연관 기형, 태아수종 동반 여부, 병변의 크기, 위치 등을 조사하였다. 선천성낭성샘모양기형은 낭종의 크기를 Stocker 등[2]의 분류에 따라 2 cm 이상의 거대 낭종이나 여러 개 낭종으로 구성되어 있는 type I, 2 cm 이하의 여러 개 소낭으로 구성되어 있는 type II, 0.5-5.0 mm의 미세 낭종이나 낭성병변이 없는 균질한 고에코성 병변으로 구성된 경우 type III로 분류하였다[9]. 분만 후 병변의 소실이나 최대 장축 값의 감소를 조사하였고, 병변 크기의 감소는 진단 당시 크기에 비해 50% 이상 감소한 것을 기준으로 하였다. 30% 감소를 기준으로 해서 조사한 결과는 통계학적으로 의미 있게 나온 결과가 없어 50%를 기준으로 하여 연구를 진행하였다. 산전초음파검사에 의한 추정 진단과 산후 신생아의 영상의학적검사나 수술 후 조직학적 소견으로 확인된 최종 진단을 비교하여 진단의 일치율을 얻었다.

연구 결과의 통계분석은 Student *t*-test, Mann-Whitney U-test, Chi-square test, Fisher's exact test를 사용하였다. *P* 값이 0.05 미만인 경우를 통계학적 유의성이 있는 것으로 간주하였다.

결 과

1. 태아 폐종양의 산전초음파 진단

CCAM과 BPS군 간에 임신부 연령, 산과력, 처음 진단된 임신 주수, 분만 임신 주수의 유의한 차이는 없었다(Table 1). Fig. 3은 산전초음파 검사를 통해 선천성낭성샘모양기형 또는 기관지폐분리증으로 진단된 55예의 임신 결과에 대한 모식도이다. 55예 중 30예에서 추적관찰이 가능하였으며 임신중절을 한 3예를 제외하고 27예 중 18예는 산전초음파 검사에서 선천성낭성샘모양기형으로 진단되었고, 9예는 기관지폐분리증으로 진단되었다. 기관지폐분리증으로 진단된 9예 중 1예는 27주에 자궁내 사망하였다. 산후의 영상의학적검사와 수술 시 병리소견을 통해 산전진단과 비교한 결과 본 연구에서의 산전진단의 민감도는 CCAM

Table 1. Demographic characteristics between prenatally diagnosed CCAM and BPS

	CCAM (n=42)	BPS (n=13)
Mean age (yr)	31.83±3.80	31.77±5.96
Parity		
Primipara (n)	26 (61.9%)	7 (53.8%)
Multipara (n)	16 (38.1%)	6 (46.2%)
GA at diagnosis (wk)	23.06±2.79	21.96±1.52
GA at birth (wk)	36.84±5.72	38.17±2.55
Birth weight (g)	2,270±1,000	3,310±710

CCAM, cystic adenomatoid malformation; BPS, bronchopulmonary sequestration; GA, gestational age.

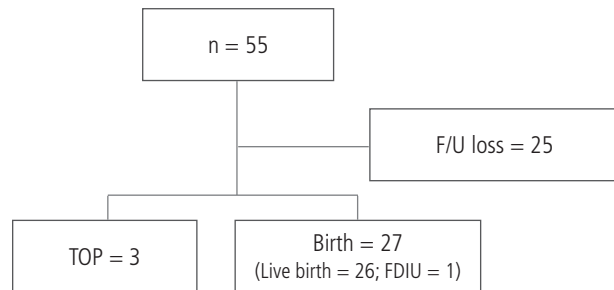


Fig. 3. Overall of pregnancy outcome of 55 cases prenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid malformation and bronchopulmonary sequestration. F/U, follow-up; TOP, termination of pregnancy; FDIU, fetal death in uterus.

Table 2. Diagnostic sensitivity and specificity and predictive value of CCAM and BPS

		Prenatally diagnosed	
		CCAM (n)	BPS (n)
Postnatally	CCAM (n)	14	4
Diagnosed	BPS (n)	6	3

Sensitivity value: CCAM 0.7 (70.0%); BPS 0.42 (42.9%).

Specificity value: CCAM 0.42 (42.9%); BPS 0.7 (70.0%).

Positive predictive value: CCAM 0.78 (77.8%); BPS 0.67 (66.7%).

Negative predictive value: CCAM 0.33 (33.3%); BPS 0.78 (77.8%).

CCAM, congenital cystic adenomatoid malformation; BPS, bronchopulmonary sequestration.

70%, BPS 42.9%였고 특이도는 CCAM 42.9%, BPS 70.0%였다. 양성 예측도는 CCAM 77.8%, BPS 66.7%, 음성 예측도는 CCAM 33.3%, BPS 77.8%였다(Table 2).

산전초음파검사서 선천성낭성샘모양기형이 의심된 42예 중, 태아 수종은 5예에서 발견되었으며 기관지폐분리증이 의심된 13예 중에서는 1예에서 발견되었다. 기관지폐분리증과 태아수종이 동반되었던 1예는 임신 27주에 자궁내 태아사망하였다.

Table 3. Clinical characteristics between prenatally diagnosed CCAM and BPS

	CCAM n (%)	BPS n (%)
Total	42 (76.4)	13 (23.6)
Mass		
Location		
Left	15 (35.7)	8 (61.5)
Right	27 (64.3)	5 (38.5)
Type of CCAM		
I	9 (21.4)	
II	17 (40.4)	
III	13 (30.9)	
NA	3 (7.1)	
Size at diagnosis (cm)	3.31±1.38	3.28±0.93
Size at birth (cm)	1.63±0.56	2.86±0.64
Decreasing size (cm)	1.68	0.42
Spontaneous regression	6 (14.3)	0
F/U loss	22 (52.4)	3 (23.1)
Mediastinal shift		
Yes	25 (59.5)	6 (46.2)
No	17 (40.5)	7 (53.8)
Hydrops		
Yes	5 (11.9)	1 (7.7)
No	37 (88.1)	12 (92.3)
Associated anomalies		
Yes	5 (11.9)	0 (0)
No	37 (88.1)	13 (100)
FDIU	0 (0)	1 (7.7)

CCAM, congenital cystic adenomatoid malformation; BPD, bronchopulmonary sequestration; NA, not available; F/U: follow-up; FDIU, fetal death in uterus.

진단 시 종격동 이동은 선천성낭성샘모양기형의 59.5% (25/42), 기관지폐분리증의 46.2% (6/13)에서 발견되었다. 병변의 위치는 CCAM의 경우 오른쪽 폐에 병변이 있는 경우가 27예(64.3%)로 왼쪽보다 많았고, BPS는 왼쪽이 8예(61.5%)로 오른쪽보다 많았다. CCAM과 BPS 모두 양쪽 폐에 병변이 있는 경우는 없었다. CCAM을 Stocker의 분류에 따라 기술하였으며 type II가 40.4%로 가장 많았다(Table 3).

병변의 크기는 CCAM의 경우 처음 진단 시 3.31±1.38 cm에서 분만 시 1.63±0.56 cm으로 1.68 cm 감소하였고, BPS는 3.28±0.98 cm에서 2.86±0.64 cm으로 0.42 cm 감소해서 CCAM의 크기가 더 많이 감소한 것으로 나타났다(Table 3).

2. 임신경과

CCAM이나 BPS로 진단된 후 25예에서 추적관찰이 소실되었으며, 추

적관찰이 이루어진 30예 중 3예는 임신중절을 시행하였으며, 1예는 27주에 자궁내 태아사망하였고 나머지 26예는 정상분만하였다. 정상분만한 26예를 분석한 결과 4예에서 분만 전에 병변이 완전 소실되었다. 10예에서 50% 이상의 병변 크기 감소가 있었고 이 중 CCAM이 7예, BPS가 3예 있었다. CCAM 7예 중 2예에서 출생 이후 병변의 완전 소실이 있었다. 나머지 CCAM 7예, BPS 5예에서는 병변 크기의 변화가 50% 이내이거나 약간 증가한 것으로 나타났다.

CCAM 18예 중 종격동 이동이 동반되지 않은 10예 중 5예가 50% 이상의 크기 감소가 있었고 BPS 9예 중 종격동 이동이 동반되지 않은 3예에서 1예가 50% 이상의 크기 감소가 나타났다. 이에 50% 이상 병변 크기의 감소에 영향을 미치는 인자를 분석한 결과 종격동 이동이 동반되지 않은 경우에서 통계학적으로 유의하게 병변 크기가 감소하는 것으로 나타났다($P=0.019$).

진단 시 평균 주수는 CCAM 23.06 ± 2.79 주, BPS 21.96 ± 1.52 주였으며 평균 분만 주수는 CCAM 36.84 ± 5.72 주, BPS 38.17 ± 2.55 주였다. 분만 시 신생아의 평균 체중은 CCAM $2,770 \pm 1,000$ g, BPS $3,310 \pm 710$ g였고 이러한 차이는 CCAM이 BPS보다 이른 주수에 분만이 이루어졌기 때문으로 생각된다. 분만 시 병변의 평균 크기는 CCAM 1.63 ± 0.56 cm, BPS 2.86 ± 0.64 cm였으며 CCAM 5예에서 동반된 기형이 있었고 이 중 1예에서 태변마개증후군(meconium plug syndrome)이 동반되어 장 절제술을 시행하였고 기관지폐분리증은 동반기형이 없었다(Table 3).

3. 출생 후 신생아의 분석

출생 후 신생아의 경과를 분석한 결과 분만 전까지 완전 소실된 경우는 4예, 출생 후 완전 소실된 경우가 2예 있었고, 6예 모두 산전에 선천성낭성샘모양기형으로 진단되었다. 출생 후 수술을 시행한 경우는 선천성낭성샘모양기형 6예, 기관지폐분리증 2예 있었고 4예의 선천성낭성샘모양기형, 2예의 기관지폐분리증에서 흉부 단층촬영 등을 이용한 추적관찰 중이며 추적 관찰 기간 동안 양호한 예후를 보였다(Table 4).

고 찰

본 연구에서 산전진단과 산후진단의 일치율은 63.0%였으며 3예의 임

Table 4. Neonatal outcomes (n=26)

	CCAM (n)	BPS (n)
Regression of mass at birth	4	0
Regression of mass during postnatal period	2	0
Postnatal operation	6	2
Ongoing F/U	4	2
F/U loss after birth	3	3

CCAM, congenital cystic adenomatoid malformation; BPS, bronchopulmonary sequestration; F/U, follow-up.

신중절을 제외하고 임신을 지속한 27예 중 기관지폐분리증으로 진단된 1예는 자궁내 태아사망하였고 26예는 모두 생존하여 생존율은 96.3%였다. 외국의 문헌에 따르면 CCAM의 사망률은 9-49%이고, BPS의 사망률은 다양하게 보고되고 있으나 태아수종이 동반되지 않는 경우에는 예후가 좋은 것으로 알려져 있다[10]. 본 연구에서는 산전에 태아수종이나 복수가 동반된 경우가 CCAM 5예, BPS 1예 있었고 BPS 1예는 자궁내 태아사망하였다. CCAM 5예 중 1예는 분만하여 현재 추적관찰 중이며 4예는 추적관찰되지 않았다.

Roberts 등[11]의 보고에 따르면 선천성낭성샘모양기형과 recombinant chromosome 18이 연관성이 있다고 하였고, 동반되는 소견으로 기관지폐분리증, 양수과다증, 태아수종, 거대 태반 등이 있다고 하였다[11]. 연관 기형으로는 신장기형, 복벽 이상, 중추신경계 이상, 척추 이상, 소화기계 이상 등이 있을 수 있다[11]. 본 연구에서는 CCAM 5예에서 mega cisterna magna, bowel obstruction, adrenal gland cyst 등의 동반 기형이 있었으나 염색체 이상은 발견되지 않았다. 문헌에 따르면 CCAM에서 bowel obstruction이 동반되는 이유는 병변의 mass effect 때문일 것으로 추측하고 있다[11].

선천성낭성샘모양기형의 크기는 보통 28주에 최대 성장에 이르고, 29주 이후에는 약 20-40%에서 크기가 감소하는 것으로 알려져 있다[12-16]. 추적관찰 중 병변이 소실된 경우에도 출생 후 반드시 computerized tomography (CT)와 같은 영상검사를 시행할 것이 권고되는데 Illanes 등[17]은 병변이 소실된 21예에서도 흉부 CT에서 이상이 발견된 경우가 14예(67%)였다고 보고하였다. 본 연구에서는 병변이 소실된 경우에서 생후에 CT를 시행하였고 이상이 발견된 예는 없었다.

Stocker 등[2]은 CCAM을 낭종의 크기에 따라 3가지 유형으로 분류하였고 type I에서 예후가 좋다고 하였는데 본 연구에서는 type과 예후와의 연관성은 발견하지 못하였다. 이러한 결과는 대상이 된 수가 적어서 통계학적으로 의미 있는 결과가 나오지 않은 것으로 생각된다.

본 연구 결과 CCAM은 오른쪽, BPS는 왼쪽에 병변이 있었던 경우가 더 많았으나 Cavoretto 등[8]의 연구에서는 CCAM이 왼쪽에서 더 많이 발견되었고, BPS의 경우도 왼쪽이 더 많았다. 그러나 양쪽에 병변이 있었던 경우는 없었고 다른 문헌들에서도 병변이 한쪽 폐엽에 국한되는 경향을 보였다[9]. 병변의 위치가 예후에 미치는 영향에 대해서는 아직 정확히 밝혀진 기전이 없어 추후 연구를 지속한다면 의미 있는 결과를 얻을 수 있을 것으로 생각된다.

전 세계적 선천성 폐 덩어리의 산전연구 대부분에서 증례의 수가 30예 미만이었던 것에 비해 본 연구에서는 증례의 수가 55예였고 추적관찰이 가능했던 경우도 30예에 달했다는 점에서 의의가 있다[8].

최근의 선천성 폐 덩어리에 관한 연구에서 종격동 이동과 예후와의 의미 있는 연관성을 보고한 연구는 없었으나[17,18], 본 연구에서는 종격동 이동이 동반되지 않은 CCAM이나 BPS에서 의미 있게 병변 크기가 감소하거나 소실되는 결과를 보였다. 이러한 결과는 산전에 CCAM 혹은 BPS로 진단된 산모들의 산전 상담에 유용한 지표로 사용될 수 있을 것으로 생각된다.

그러나 본 연구에서는 태아수종 등의 다른 요인들과 병변 크기 감소

와의 연관성을 찾지 못하였고, 병변의 크기 변화를 장축의 길이로만 비교하였다는 제한점이 있다. 향후 더 많은 CCAM, BPS 환자군을 대상으로 임신 결과와 예후인자들에 대한 연구가 필요할 것으로 생각된다.

References

1. Ahn HK, Han JY, Choi JS, Lim HJ, Moon MJ, Jung JH, et al. Pregnancy outcome of the prenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid lung malformation. *Korean J Obstet Gynecol* 2003;46:1556-9.
2. Stocker JT, Madewell JE, Drake RM. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung. Classification and morphologic spectrum. *Hum Pathol* 1977;8:155-71.
3. Wilson RD, Hedrick HL, Liechty KW, Flake AW, Johnson MP, Bebbington M, et al. Cystic adenomatoid malformation of the lung: review of genetics, prenatal diagnosis, and in utero treatment. *Am J Med Genet A* 2006;140:151-5.
4. Yildirim G, Güngördük K, Aslan H, Ceylan Y. Prenatal diagnosis of an extralobar pulmonary sequestration. *Arch Gynecol Obstet* 2008;278:181-6.
5. Plattner V, Haustein B, Llanas B, Allos N, Vergnes P, Hérouy Y. Extra-lobar pulmonary sequestration with prenatal diagnosis. A report of 5 cases and review of the literature. *Eur J Pediatr Surg* 1995;5:235-7.
6. Dolkart LA, Reimers FT, Helmuth WV, Porte MA, Eisinger G. Antenatal diagnosis of pulmonary sequestration: a review. *Obstet Gynecol Surv* 1992;47:515-20.
7. Lee HJ, Song MJ, Cho JY, Lee YH. Echogenic fetal lung masses: comparison of prenatal sonographic and postnatal CT findings. *J Clin Ultrasound* 2003;31:419-24.
8. Cavoretto P, Molina F, Poggi S, Davenport M, Nicolaides KH. Prenatal diagnosis and outcome of echogenic fetal lung lesions. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2008;32:769-83.
9. Thorpe-Beeston JG, Nicolaides KH. Cystic adenomatoid malformation of the lung: prenatal diagnosis and outcome. *Prenat Diagn* 1994;14:677-88.
10. Davenport M, Warne SA, Cacciaguerra S, Patel S, Greenough A, Nicolaides K. Current outcome of antenally diagnosed cystic lung disease. *J Pediatr Surg* 2004;39:549-56.
11. Roberts D, Sweeney E, Walkinshaw S. Congenital cystic adenomatoid malformation of the lung coexisting with recombinant chromosome 18. A case report. *Fetal Diagn Ther* 2001;16:65-7.
12. Mann S, Wilson RD, Bebbington MW, Adzick NS, Johnson MP. Antenatal diagnosis and management of congenital cystic adenomatoid malformation. *Semin Fetal Neonatal Med* 2007;12:477-81.
13. Adzick NS. Management of fetal lung lesions. *Clin Perinatol* 2003;30:481-92.
14. MacGillivray TE, Harrison MR, Goldstein RB, Adzick NS. Disappearing fetal lung lesions. *J Pediatr Surg* 1993;28:1321-4.
15. Miller JA, Corteville JE, Langer JC. Congenital cystic adenomatoid malformation in the fetus: natural history and predictors of outcome. *J Pediatr Surg* 1996;31:805-8.
16. Kunisaki SM, Barnewolt CE, Estroff JA, Ward VL, Nemes LP, Fauza DO, et al. Large fetal congenital cystic adenomatoid malformations: growth trends and patient survival. *J Pediatr Surg* 2007;42:404-10.
17. Illanes S, Hunter A, Evans M, Cusick E, Soothill P. Prenatal diagnosis of echogenic lung: evolution and outcome. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2005;26:145-9.
18. Oh KJ, Yang HJ, Lee KA, Lee SM, Lee JH, Park CW, et al. Pregnancy outcomes of antenatally diagnosed congenital cystic adenomatoid malformation of lung. *Korean J Obstet Gynecol* 2009;52:413-9.

산전진단된 태아의 선천성낭성샘모양기형과 기관지 폐분리증의 비교

성균관대학교 의과대학 산부인과학교실

류주현, 차현화, 최석주, 오수영, 노정래, 김종화

목적

산전에 선천성낭성샘모양기형과 기관지폐분리증으로 진단된 증례들의 임신 결과를 비교하고 예후인자를 알아보려고 하였다.

연구방법

2005년 5월부터 2010년 9월까지 성균관대학교 삼성서울병원에서 산전에 선천성낭성샘모양기형과 기관지폐분리증으로 진단된 55예를 대상으로 임신부 및 신생아의 의무기록을 후향적으로 조사하여 산모의 특성, 산전초음파 소견, 분만 후 임신결과와 신생아 결과를 비교하였다. 출생 후 진단은 조직학적 검사 및 영상의학검사를 기준으로 하였다.

결과

산전에 선천성낭성샘모양기형과 기관지폐분리증으로 총 55예가 진단되었고, 선천성낭성샘모양기형이 42예(76.4%), 기관지폐분리증이 13예(23.6%)였다. 종격동 이동은 선천성낭성샘모양기형 25예, 기관지폐분리증 6예에서 관찰되었다. 본원에서 분만이 이루어진 총 27예 중 자궁내 태아사망 1예를 제외한 26예에서 병변이 완전 소실된 경우가 4예(15.4%)였고 모두 산전에 선천성낭성샘모양기형으로 진단되었다. 50% 이상 병변 크기의 감소가 있었던 경우는 선천성낭성샘모양기형 7예, 기관지폐분리증 3예였고, 증가한 경우는 선천성낭성샘모양기형에서만 3예, 크기의 변화가 50% 이내였던 경우는 선천성낭성샘모양기형 4예, 기관지폐분리증 5예로 나타났다. 병변의 소실이나 50% 이상 크기가 감소한 경우에 영향을 미치는 예후인자를 조사한 결과 종격동 이동($P=0.019$) 유무가 병변 크기와 유의한 상관관계가 있었다.

결론

본 연구에서 산전과 출생 후 진단의 일치율은 63.0%였다. 산전초음파에서 종격동 이동이 없었던 경우는 선천성낭성샘모양기형 59.5%, 기관지폐분리증 46.2%였고, 이 경우 병변의 크기가 의미 있게 감소하였다.

중심단어: 선천성낭성샘모양기형, 기관지폐분리증, 산전진단, 임신결과, 예후인자