

SUCCESSFUL MANAGEMENT OF ABDOMINAL PREGNANCY IMPLANTED ON POSTERIOR CUL-DE-SAC WITH POSTOPERATIVE SELECTIVE TRANSCATHETER ARTERY EMBOLIZATION: A CASE REPORT

Young-Ran Kim, MD¹, Gyeong-Sik Jeon, MD², Young-Ju Jeong, MD³, Jeong-Heon Lee, MD³, Dong-Hyu Cho, MD³

Departments of ¹Obstetrics and Gynecology, ²Radiology, CHA Bundang Medical Center, CHA University, Seongnam; ³Department of Obstetrics and Gynecology, Chonbuk National University Medical School, Jeonju, Korea

Primary abdominal pregnancy with implantation on the posterior cul-de-sac area is a very rare form of ectopic pregnancy that involves nonspecific clinical symptoms and physical findings, making early diagnosis very difficult. Whereas diagnostic laparoscopy can be performed in suspicious of abdominal pregnancy for accurate diagnosis and treatment, complete ligation of the vessel supplying blood to the placenta during surgery is often difficult. In many cases, there is continuous massive hemorrhage after ligation, significantly increasing maternal morbidity and mortality. We herein report with literature references a case of a 33-year-old female patient of primary abdominal pregnancy with implantation on the posterior cul-de-sac area. She showed hemostatic failure in a blood vessel after undergoing a surgery to remove the gestational sac, and was successfully treated with additional transcatheter arterial embolization.

Keywords: Posterior cul-de-sac; Abdominal pregnancy; Transcatheter arterial embolization

복강임신은 수정란이 난관, 난소, 광인대내를 제외한 복강 내에 착상된 임신 상태로 그 빈도는 전체 자궁외임신 중 약 1%를 차지하는 극히 드문 질환이다[1]. 복강임신은 일반적으로 초기 임신 및 절박유산의 증상인 불규칙한 출혈, 오심, 구토, 하복부 불편감 이외에 특징적인 증상이 없기 때문에 조기진단이 매우 어렵다[2]. 또한, 복강임신 치료의 가장 큰 문제점은 태반의 완전 제거이지만 수술 중 심한 출혈로 산모의 사망률을 높일 수 있다. 본 저자들은 다량의 혈복강을 동반한 질출혈과 복통을 주소로 내원한 33세 여자 환자에서 임신낭제거술 후에도 지혈되지 않은 혈관이 존재하여 추가적 경도관 동맥색전술을 통해 성공적으로 치료했던 후질원개부에 착상된 원발성 복강임신 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 증례 보고하는 바이다.

증례

환자: 김 O O, 33세

산과력: 0-0-0-0

월경력: 초경은 14세, 월경주기는 26일로 규칙적이었고 기간은 8일, 양은 보통이었으며 월경통은 없었다. 최종월경 시작일은 2009년 8월

22일이었다.

과거력 및 산과력: 특이사항 없었다.

가족력: 특이사항 없었다.

현병력과 이학적 소견: 무월경 4주로 4일 전부터 시작된 질출혈과 동반된 복부 통증을 주소로 2009년 9월 19일 본원 응급실에 내원하였다. 내원 당시 혈압은 110/70 mm Hg, 맥박 65회/분, 체온 37.6°C, 호

Received: 2011. 8. 1. Revised: 2011. 9.23. Accepted: 2011.10.13.

Corresponding author: Dong-Hyu Cho, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Chonbuk National University Medical School, 634-18 Geumam-dong, Deokjin-gu, Jeonju 561-712, Korea

Tel: +82-63-250-1360 Fax: +82-63-254-4833

E-mail: obgyn2001@hanmail.net

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

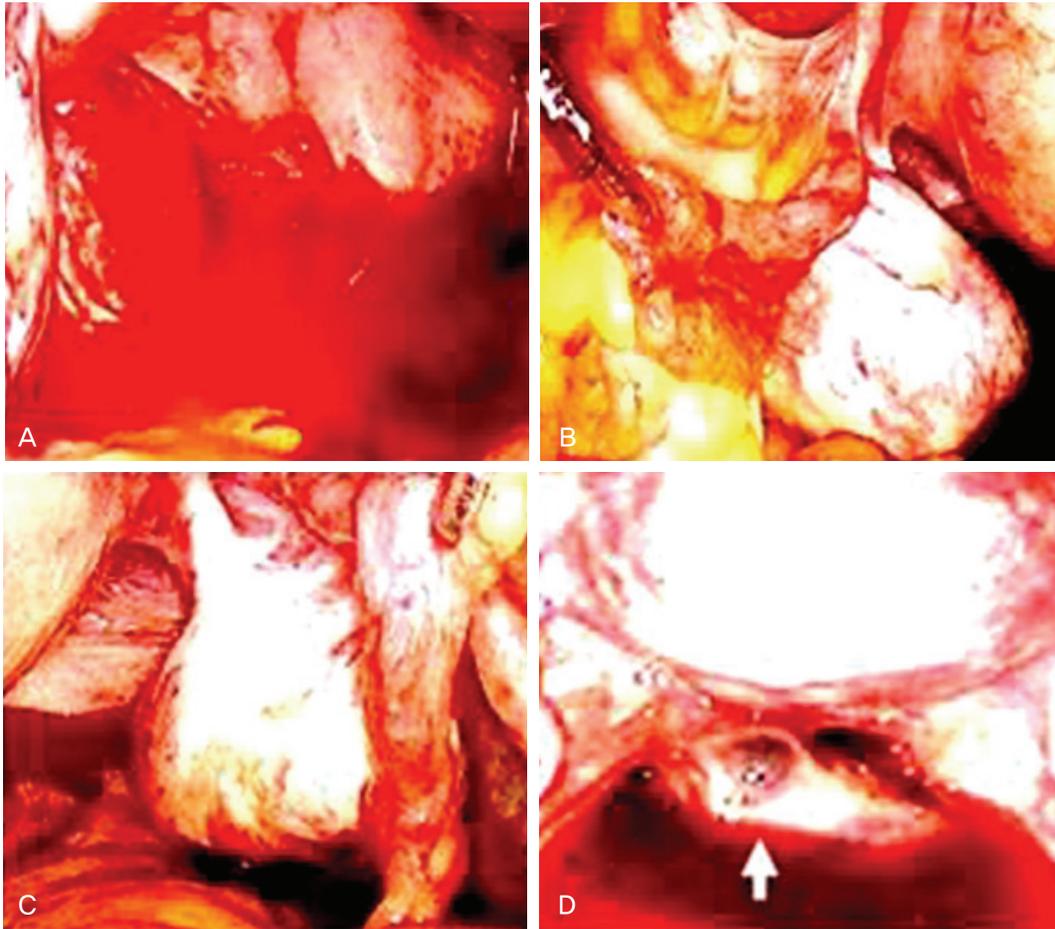


Fig. 1. Laparoscopic operation findings (A) Hematoma and blood clots are noted in pelvic cavity. (B) Left salpinx shows normal appearance with Lt. dermoid cyst. (C) Right adnexa shows normal appearance. (D) About 3 × 4 cm sized cystic mass was noted on posterior cul-de-sac (white arrow).

흡수는 20회/분이었으며 전신쇠약감 및 약간의 어지러움을 호소하였다. 하복부 전체에 약한 통증이 있었으나 전반적인 압통과 반발통은 없었다. 골반 내진에서 질 및 외음부는 특이소견 없었으며, 양측 부속기 부위에 약한 압통만이 관찰되었다. 내원후 질출혈 및 복통 증상이 완화되고, 질초음파에서 좌측 난소에 5.6 × 3.5 cm 정도의 낭종이 관찰되었으나, 임신낭이 보이지 않아 외래 추적 관찰하기로 하였다. 외래 human chorionic gonadotropin (β-hCG) 추적 관찰중 2009년 10월 28일 무월경 9주4일째 하복부 통증과 어지러움증을 동반한 의식 저하를 주소로 본원 응급실에 내원하였다. 내원당시 혈압은 70/50 mm Hg, 맥박 100회/분, 체온 36.0°C, 호흡수는 20회/분이었으며 의식은 혼탁한 상태였고, 안면은 창백하였으며 병약한 모습이었다. 복부가 전반적으로 팽만되어 있었으며, 전반적인 압통과 하복부 전체에 반발통이 있었다.

검사 소견: 2009년 9월 19일 응급실 첫 내원 당시 혈액검사에서 혈색소 10.2 g/dL, 적혈구용적 33.1%, 혈소판 387,000/mm³, 백혈구 6,290/mm²였으며, 혈중 β-hCG는 67.9 mIU/mL였다. 2009년 10월 28일 응급실 내원 시 혈액검사는 혈색소 7.1 g/dL, 적혈구용적 23.1%, 혈소판 337,000/mm³, 백혈구 4,200/mm³, 혈중 β-hCG는 23,021 mIU/mL이었으며, prothrombin time는 14.1 sec, activated partial

thromboplastin time는 33.9 sec이었다. 그 이외 간기능, 신기능검사 및 심전도검사, 흉부방사선 소견은 특이 소견을 보이지 않았다.

초음파 소견: 자궁은 정상 크기였으며, 자궁내강에 임신낭은 보이지 않았고, 자궁외임신으로 추정되는 부위는 확인할 수 없었으나, 좌측난소에 약 5 cm 크기의 외피낭종으로 보이는 음영이 보였으며, 더글라스와에 다량의 혈액으로 추정되는 저 반향성의 물질이 고여 있었다.

수술소견: 전신마취하에 체대 부위 10 mm 투관침 삽입 후 골반 및 복강 내부를 관찰하였으며, 약 1,500 mL의 혈종과 동반된 출혈 소견이 관찰되었다. 자궁은 약간 커져있었고, 양측 나팔관과 우측 난소는 정상 소견이었으며, 좌측 난소는 탁구공 크기의 외피낭종으로 보이는 낭성 종괴가 확인되었다. 혈액 흡입 및 혈괴 제거 후 출혈원인을 확인하던 중 좌측 자궁천공인대 하부에 위치한 후질원개부에 단단히 부착되어 있는 3 × 4 cm 정도의 배아 조직의 일부로 보이는 출혈성 낭종이 관찰되었다(Fig. 1). 낭종제거술 및 좌측 외피 낭종절제술을 시행한 후 낭종제거 부위에서 지속적인 출혈이 있어 전기소작술을 통해 지혈 조치를 시행하였으나, 착상되었던 후질원개부 부위 혈관으로부터 지속적인 대량 출혈로 인해 수술도중 생체징후는 혈압 90/50 mm Hg, 맥박 120 회/분이었으며, arterial blood gas analysis에서 hemoglobin가 6.1 g/dL까지 측정되어 농축 적혈구 11 units와 신선동결혈장 6 unit를 수혈

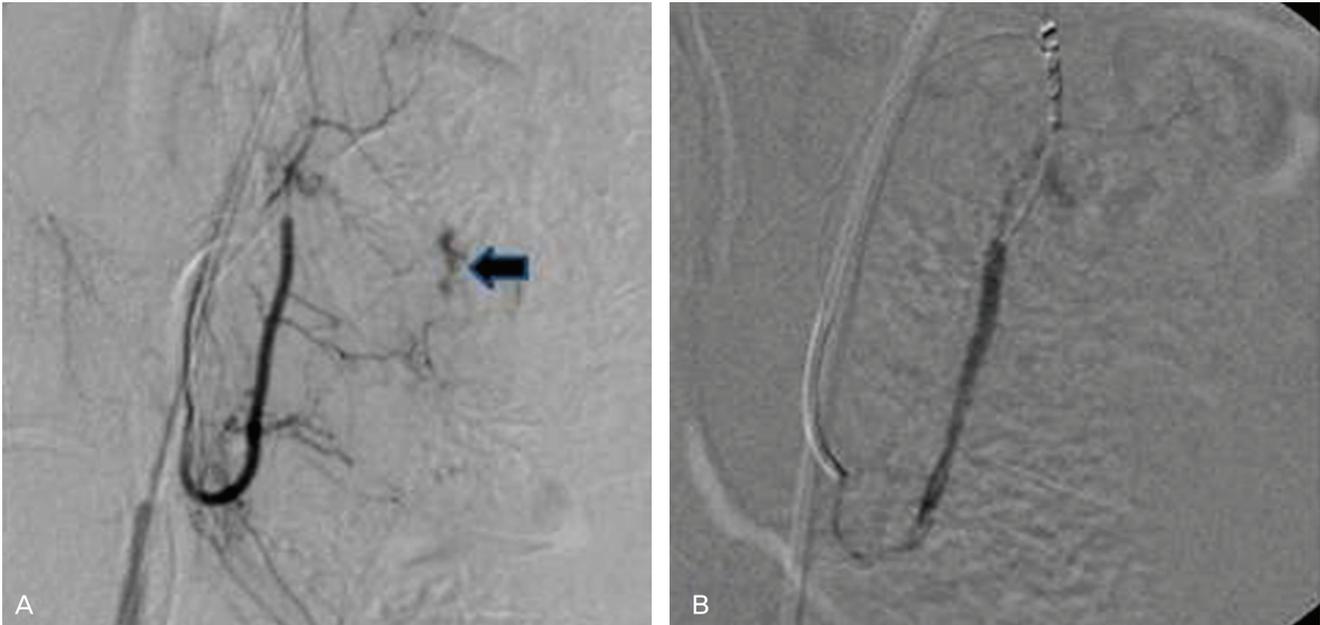


Fig. 2. (A) Right inferior epigastric artery angiogram showed contrast extravasation (black arrow). (B) To protect the distal portion of inferior epigastric artery, embolization was done.

하였고, 복강내 드레인을 삽입한 후, 곧바로 술후 응급 경도관 동맥색전술을 시행하기로 결정하였다.

영상검사: 수술 후 혈관 촬영실에 도착할 당시 생체징후는 혈압 90/70 mm Hg, 맥박 110회/분, 체온 37.6°C, 호흡수 분당 20회, 산소 포화도는 100%를 보였다. 경도관 동맥색전술은 우측 서혜부를 소독한 후 리도카인 국소마취 하에 우측 대퇴동맥을 천자하여 5 French (F) 코브라 카테터(Cook, Bloomington, IN, USA)를 삽입하였다. 먼저 우측 대퇴 동맥으로 접근하여 하행 대동맥에서 시행한 혈관 조영술상 출혈(extravasation)이 관찰되었다(Fig. 2A). 우측 내장골 동맥(Rt internal iliac artery)에서 시행한 혈관 조영술에서 비정상적인 착색소견이 관찰되어 하부 하둔 동맥(inferior gluteal artery)에서 3F 미세도관(Tracker-18 infusion Catheter, Boston Scientific, Fremont, CA, USA)를 이용하여 출혈 동맥을 선택한 후 Gelfoam (Johnson & Johnson, Skipton, UK)으로 색전하였다(Fig. 2B). 색전 물질은 355-500 μ m 크기의 polyvinyl alcohol (Contuour, Boston Scientific Corp., Natick, MA, USA)입자를 사용하였다. 일측에서만 출혈 동맥이 확인된 경우에도 출혈동맥의 색전술 후 측부혈류에 의한 재출혈을 방지하기 위하여 반대측 내장골동맥의 전방구역을, 그 외의 출혈인 경우 반대측 하부 하둔 동맥을 gelfoam으로 색전하였다. 색전술 후 양측 내장골동맥에 조영술을 다시 시행하여 더 이상의 출혈이 없음을 확인하였고, 더 이상의 수혈은 시행하지 않았다.

수술 후 경과: 수술과 추가적인 경도관 동맥색전술 시술 후 환자의 상태는 양호하였으며, 환자는 별 다른 합병증 없이 수술 후 7일째 퇴원하였다.

병리조직학적 소견: 절제한 복강내의 후질원개부에 위치한 종괴의 절

편에서 다수의 용모막 용모 및 영양세포들이 관찰되었으며, 좌측 난소는 외피낭종으로 진단되어 좌측 외피낭종을 동반한 복강임신임을 확인하였다.

고찰

자궁외임신은 수정란이 자궁내막 이외의 부위에 착상된 임신으로, 발생부위는 난관부위가 자궁외 임신의 약 95%를 차지하며, 그외 난소, 자궁각, 자궁경부, 자궁벽 등에서도 발생되고 있다[3]. 복강임신은 크게 일차성과 이차성으로 분류할 수 있다. 일차성 복강임신은 드물며, 주로 난관임신이 유산되거나 파열된 후 복강 내로 착상이 되는 이차성 복강임신이 대부분을 차지한다. 일차성 복강임신은 수정란이 처음부터 복막이나 장막에 착상한 것으로 1) 양측 난소, 난관이 정상이며, 과거 혹은 최근 임신 손상의 흔적이 없어야 하고, 2) 자궁과 복강 사이에 누공이 없으며, 3) 착상부위는 복막 표면에 한정되어 있고, 조기에 난관착상 후 이차적 착상의 가능성을 배제할 수 있어야 한다와 같은 Studdiford [4]의 판정기준을 만족시켜야 한다. 본 증례의 경우 난관의 열상, 파열과 같은 이상 소견이 없고, 자궁과 복강사이의 누공이 없었으며 착상 부위가 자궁 뒤쪽 후질원개 부위에 착상 부위가 있어서 일차성 복강임신에 합당한 소견을 보였다.

일차성 및 이차성 복강임신은 두 형태의 임신이 진단 및 치료가 유사하므로 최근에는 재태연령에 따라 분류하는 추세인데 임신 20주를 기준으로 하여 그 이하를 조기 복강임신, 그 이후를 진행된 복강임신으로 나누기도 한다[5].

복강임신은 조기진단이 어려워서, 진단 시에는 이미 진행되어 있는 경우가 많고 파열되었을 경우에는 대량 출혈의 가능성이 많으며, 수술 시 태반 부착 부위의 완전 제거가 어려워 출혈 및 기저 장기의 손상 위험성이 매우 높다. 따라서 산모치명률이 자궁내임신의 90배 가량 높은 치명률을 보여 임신과 관련된 사망률의 10%를 차지하고 있다[5]. 그러므로 복강임신으로 인한 모성의 이환율과 사망률을 줄이기 위해서는 조기 진단 및 치료가 반드시 이루어져야 한다.

복강임신의 임상 증상은 임신 지속기간과 태반의 착상 부위에 따라 다양하게 나타나는데 가장 흔한 증상은 복통이나 이외에 오심, 구토, 변비, 질 점상 출혈 등 임신 초기의 일반적인 증상만이 나타나서 조기 진단이 매우 어렵다[6]. 혈액검사에서 혈청 태아알파단백의 수치가 이상 증가를 보이면서 양수 내의 태아알파단백은 정상으로 나타날 경우 복강임신을 진단할 수 있다는 보고가 있으나 진단의 특이성이 낮다[7].

임상 증상 외에 진단에 도움을 줄 수 있는 방법으로 초음파검사, 자기공명영상 등이 있으나 진단율은 상당히 낮은 것으로 알려져 있다. 복강 임신의 초음파 진단 기준으로 Akhan 등[8]은 다음의 4가지를 언급하였는데 1) 태아가 자궁으로부터 분리되어 보이며, 2)태아와 방광 사이에 자궁벽이 보이지 않고, 3) 태아 부위가 모체의 복벽과 가까이 있으며, 4) 비정상적인 태위, 태향, 자궁 밖에서 자궁조직이 보일 때 등이다. 하지만, 위의 진단기준에 의해 진단할지라도 골반의 다른 구조물들로 인해 진단율은 약 50%로 보고되고 있다[9].

현재까지 복강임신을 진단하는 가장 우수한 방법으로 자기 공명 영상을 통한 진단 방법이 있으나 이 방법 또한 초기 임신에서는 진단율이 낮은 것으로 알려져 있으며, 침습적 방법인 진단적 복강경이 가장 정확한 진단 방법으로 선택되고 있다.

복강임신의 치료는 그 희귀성으로 인해 치료법이 아직 정립되지 않은 상황이지만, 진단 시 이루어진 임신 주수에 따라 기대요법, 약물요법, 수술요법 등을 시행할 수 있다[10,11].

경피적 선택적 혈관조영술을 통한 경도관 동맥색전술은 1979년 Oliver와 Lance [12]가 골반 수술 시 대량 출혈의 조절을 위해 혈관색전술을 시도하여 부인과 수술에 처음 시행되었으며, 산과적 출혈에 이용된 혈관색전술은 1979년 Heaston 등[13]에 의해 처음 시도되었다. 이러한 혈관 색전술은 출혈부위를 쉽게 찾을 수 있고, 자궁을 보존하여 임신 능력을 유지할 수 있으며, 출혈하는 혈관의 더 말단 부위를 차단함으로써 측부 순환으로부터의 재출혈이 감소되는 장점을 가지고 있다. 혈관색전술 시 색전 물질로 주로 사용되는 멸균 흡수성 gelform은 비교적 저렴하고 주입방법이 용이하며 항원성과 자극성이 비교적 적다. 또한 영구적이지 않고 시술 후 21-23일 정도면 부분적으로 재소통되고, 30-35일 후에는 완전히 재소통되므로 생식력의 보존이 가능하다[14]. 이러한 생리재개가 가능하면서 장기적인 독성이 없다는 장점과 함께 주로 1 mm 이하의 직경을 가진 원위부 동맥의 색전에 이용된다. 경도관 동맥 색전술의 부작용은 천자 부위의 혈종, 발열, 감각 이상 및 골반 농양 등이 있으며, 드물지만 패혈증 및 혈전에 의한 심각한 합병증을 동반할 수 있지만 대부분 특별한 처치 없이 수일 이내에 호전되거나, 항생제 및 보존적 치료에 잘 반응하는 것으로 알려져 있다. 경도관

동맥색전술은 성공률이 매우 높고, 경험이 풍부한 중재적 방사선과 전문의에 의해 시행될 경우 합병증의 발생 빈도가 매우 낮으며, 가장 중요한 임신 능력을 보존할 수 있다는 점에서 최근 산부인과 영역에서 산부인과적 출혈의 치료로 매우 유용하게 사용되고 있다. 최근 Seok 등 [15]은 무월경 13주의 제왕절개 반흔부임신에서 혈관조영술을 시행하여 완치된 예를 보고한 바 있다.

복강임신 수술의 가장 어려운 점은 수태물의 제거와 공급하는 혈관의 결찰인데, 이것은 수태물이 유착된 위치, 유착정도 및 혈관분포 정도에 따라 다르다. 수술 과정에서 수태물의 혈액공급혈관이 확실히 보이고 혈관 결찰이 가능하다면 대부분 성공적으로 치료할 수 있다. 그러나, 수태물이 복막의 광범위한 범위에 착상되어 있거나 장 등에 유착되어 있는 경우, 과도한 출혈로 수태물의 완전 제거가 불가능한 경우에는 수술적으로 동맥 결찰을 시도해 볼 수 있으나, 혈관 결찰이 대단히 어렵다. 본 증례와 같이 과도한 출혈로 인해 수태물의 완전한 제거와 수태물을 공급하는 혈관을 결찰하지 못해 지연된 심한 복강내 출혈 시 추가적인 치료로 술후 응급 경도관 동맥색전술을 고려해 볼 수 있다.

결론적으로 복강임신은 매우 드물지만 진단이 잘못되거나 늦어져 산모의 이환율 및 사망률이 매우 높은 질환이므로 조기에 정확한 진단을 통해 심각한 합병증의 발생을 방지하도록 노력해야 하며, 복강임신이 의심될 경우에는 진단 복강경을 통해 정확한 진단 및 처치를 시행할 수 있고, 수술 시 태반의 혈액 공급 혈관의 완전한 결찰이 어렵거나, 결찰 후에도 지속적인 출혈이 있는 경우에는 수술 후 경도관 동맥색전술을 통한 처치가 지혈 치료에 유용한 방법이 될 수 있다.

References

1. Atrash HK, Friede A, Hogue CJ. Abdominal pregnancy in the United States: frequency and maternal mortality. *Obstet Gynecol* 1987;69:333-7.
2. Delke I, Veridiano NP, Tancer ML. Abdominal pregnancy: review of current management and addition of 10 cases. *Obstet Gynecol* 1982;60:200-4.
3. Bayless RB. Nontubal ectopic pregnancy. *Clin Obstet Gynecol* 1987;30:191-9.
4. Studdiford WE. Primary peritoneal pregnancy. *Am J Obstet Gynecol* 1942;44:487-91.
5. Martin JN Jr, McCaul JF 4th. Emergent management of abdominal pregnancy. *Clin Obstet Gynecol* 1990;33:438-47.
6. Beacham WD, Hernquist WC, Beacham DW, Webster HD. Abdominal pregnancy at Charity Hospital in New Orleans. *Am J Obstet Gynecol* 1962;84:1257-70.
7. Bombard AT, Nakagawa S, Runowicz CD, Cohen BL, Mikhail MS, Nitowsky HM. Early detection of abdominal pregnancy by maternal serum AFP+ screening. *Prenat Diagn* 1994;14:1155-7.

8. Akhan O, Cekirge S, Senaati S, Besim A. Sonographic diagnosis of an abdominal ectopic pregnancy. *AJR Am J Roentgenol* 1990;155:197-8.
9. Costa SD, Presley J, Bastert G. Advanced abdominal pregnancy. *Obstet Gynecol Surv* 1991;46:515-25.
10. Kwon JY, Shin WM, Yoon JS, Hwang SJ, Park IY, Min KO, et al. A case of abdominal pregnancy implanted on uterosacral ligament. *Korean J Obstet Gynecol* 2007;50:1027-32.
11. Seok HH, Lee WS, Yoon TK, Kim SH, Won HJ, Kim YS, et al. A case of abdominal pregnancy on abdominal scar following in vitro fertilization and embryo transfer in a patient with bilateral tubal obstruction. *Korean J Obstet Gynecol* 2008;51:355-8.
12. Oliver JA Jr, Lance JS. Selective embolization to control massive hemorrhage following pelvic surgery. *Am J Obstet Gynecol* 1979;135:431-2.
13. Heaston DK, Mineau DE, Brown BJ, Miller FJ Jr. Transcatheter arterial embolization for control of persistent massive puerperal hemorrhage after bilateral surgical hypogastric artery ligation. *AJR Am J Roentgenol* 1979;133:152-4.
14. Uflacker R, Wholey MH. Interventional radiology. In: Uflacker R, editor. *Embolization procedure: techniques and materials*. New York: McGraw-Hill; 1991. p.17-9.
15. Seok JM, Moon MJ, Chang SW, Lee YM, Jang JH, Baek MJ. Successful management of cesarean scar pregnancy at 13 weeks of gestation by uterine artery embolization: a case report. *Korean J Obstet Gynecol* 2010;53:934-9.

후질원개부에 착상된 복강임신의 수술 후 경도관 동맥색전술치료 1예

¹차의과대학교 분당차병원 여성병원 산부인과교실, ²영상의학과교실, ³전북대학교 의학전문대학원 산부인과학교실
김영란¹, 전경식², 정영주³, 이정현³, 조동휴³

자궁외임신 중 후질원개 부위에 착상된 원발성 복강임신은 아주 드문 형태로, 임상 증상 및 이학적 소견이 비특이적이어서 조기진단이 매우 어렵다. 복강임신이 의심될 경우에는 진단 복강경을 통해 정확한 진단 및 처치를 시행할 수 있으나, 수술 시 태반의 혈액 공급 혈관의 완전한 결찰이 어렵거나, 결찰 후에도 지속적인 대량 출혈이 있는 경우가 많아 산모의 이환률 및 사망률이 상당히 높다. 본 저자들은 33세 여자 환자에서 임신낭제거술 후에도 지혈되지 않은 혈관이 존재하여 추가적 경도관 동맥색전술을 통해 성공적으로 치료했던 후질원개부에 착상된 원발성 복강임신 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 증례 보고하는 바이다.

중심단어: 후질원개부, 복강임신, 경도관 동맥색전술