

A CASE OF SUCCESSFUL VAGINAL DELIVERY IN A PATIENT WITH A REPAIR OF AN IMPERFORATE ANUS

Hye Young Kim, MD, Eunjin Kim, MD, Minji Kang, MD, Chan-Wook Park, MD, PhD, Joong Shin Park, MD, PhD, Jong Kwan Jun, MD, PhD

Department of Obstetrics and Gynecology, Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

As a general recommendation, women with a repair of an imperforate anus are candidates for vaginal deliveries if no contraindications exist. The adequacy (size and scarring) of the perineal body should be assessed by the obstetricians before making that decision. Together with a brief review of literature, we report a successful case of vaginal delivery in a woman with a repair of imperforate anus.

Keywords: Imperforate anus; Repair; Vaginal delivery

항문막힘증(imperforate anus)은 항문의 선천성 결함으로 출생 시 항문이 없거나 정상적인 항문 괄약근안에 위치하지 못하는 상태를 말한다. 항문막힘증의 발생빈도는 5,000명당 한 명 정도이다[1]. 항문막힘증 교정수술을 받은 병력이 있는 산모에서 질식분만의 금기증이 존재하지 않는다면 질식분만하는 것이 추천되고 있기는 하나, 이에 대해서 여전히 논쟁 중이다[2]. 그래서 일부 산부인과 의사들은 항문막힘증을 포함해 항문직장기형으로 교정수술을 받은 모든 산모들에게 제왕절개로 분만하기를 권하기도 한다[3-5]. 1970년대 우리나라에서 항문막힘증 교정수술이 시작된 후, 그 환아들이 산모가 되어 분만할 연령에 이르렀으나 아직까지는 이에 대해 국내에 보고된 바 없다. 저자들은 출생 직후 항문막힘증으로 교정수술을 받은 산모에게 수술 전 시행한 검사 및 평가에서 다른 이상 소견이 없어 질식분만에 성공한 1예를 경험하였기에 간단한 문헌고찰과 함께 국내 최초로 보고하는 바이다.

산과력: 0-0-0-0

월경력: 불규칙적이며 마지막 생리일은 기억하지 못하였다.

가족력 및 기왕력: 출생 직후 회음부누공(perineal fistula) 등의 다른 기형이 동반되지 않은 항문막힘증으로 교정술을 받았다. 그러나 항문막힘증의 유형이나 수술방법에 대해서는 모른다고 하며 교정수술 이후 장 운동의 이상이나 대소변실금, 요로 감염의 병력은 없었다.

이학적 소견: 신장은 160.2 cm, 체중은 52 kg이었으며, 혈압은 102/67 mm Hg, 맥박은 90회/분, 체온은 36.4°C이었다.

검사 소견: 입원 당시 시행한 혈액검사 및 요검사는 정상이었다.

산전 초음파 소견: 태아는 두위, estimated fetal weight 3,284 g로 주수에 합당한 소견을 보였고, 폐 종괴는 외래에서 관찰한 소견과 큰 변화 없는 상태였다.

검진 소견: 내진검사는 용이하였고 자궁경부는 정상적인 모습으로 관

증례

환자: 윤 O O, 30세

주소: 임신 20주 5일, 태아 폐 종괴

현병력: 상기 30세 여자 환자는 20¹⁵주의 임신부로 타 병원에서 산전 진찰을 받던 중 임신 중기 초음파검사상 태아에서 congenital cystic adenomatoid malformation of the lung (CCAM) 소견으로 환자가 원하여 본원 외래로 전원되었다. 본원에서 시행한 초음파검사상 2.42×2.99 cm sized microcystic CCAM으로 이후 외래에서 정기적으로 관찰하다가 환자 개인적인 사정으로 39¹⁶주에 유도분만을 위해 입원하였다.

Received: 2012.5.30. Revised: 2012.8.31. Accepted: 2012.9.6.

Corresponding author: Joong Shin Park, MD, PhD

Department of Obstetrics and Gynecology, Seoul National University College of Medicine, 101 Daehak-ro, Jongno-gu, Seoul 110-744, Korea

Tel: +82-2-2072-3199 Fax: +82-2-762-3599

E-mail: jsparkmd@snu.ac.kr

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 © 2012. Korean Society of Obstetrics and Gynecology



Fig. 1. A perineal view of vagina of a patient. There is no vaginal septum, vaginal agenesis and scarring in genital tract. However there is anus near vaginal outlet (arrow).

찰되었다. 질 기형 및 교정으로 인한 생식기 부위의 흉터는 관찰되지 않았으며, Bishop score는 2점(consistency 2점)이었다. 검진상에서 항문이 있어야 하는 부위는 막혀있었고, 질 입구 바로 아래 부분에서 항문이 관찰되었다(Fig. 1).

입원 경과: 입원 당일 자궁경부 숙화를 위해 dinoprostone 10 mg을 질내 삽입하였고 다음 날, 유도분만을 시작한 지 4시간 후 분만에 성공하였다. 환자는 imperforate anus 교정 수술한 상태로 질식분만 시에 회음부 열상 발생 가능성을 배제할 수 없었으나 산모가 질식분만을 원하며, 제왕절개술을 시행할 다른 이유가 없었으므로 질식분만을 시도하였고, 항문이 질 입구와 너무 가깝게 위치한 점을 감안하여 회음절개술(episiotomy)을 시행하지 않았다. 분만 도중 질벽의 우외측(right lateral side)으로 약 1 cm의 열상이 발생하여 봉합을 시행하였으며, 아기는 1분 Apgar score 5점, 5분 Apgar score 9점으로 특이 소견 없어 신생아실로 입실하였다. 산모는 분만 이후 특이 소견 없어 예정대로 입원 3일째 퇴원하였다. 퇴원 후 동반될 수 있는 비뇨생식기 기형을 확인하기 위해 intravenous pyelogram을 시행하였고, 결과는 정상이었다.

고 찰

항문막힘증은 약 5,000명 중 1명에서 발생하는 기형으로 남녀에서 거의 비슷한 발생 빈도를 보이며 고위형 기형일수록 동반 기형이 많으며 동반 기형의 대다수는 질 또는 자궁의 중격 형성(septation anomaly)과 질의 무형성(agenesis)이다[1,6]. 발생학적으로 항문막힘증을 포함한 항문직장기형은 발생 5주에서 8주 사이에 요직장중격(urorectal septum)이 하방 이동을 하고, 소화기관과 비뇨생식계 사이로 들어가서 müllerian system을 형성하는 과정이 제대로 이루어지지 않아 발생한다[1].

항문막힘증의 경우 교정수술을 받고 나면 질의 흉터형성(vaginal scarring)으로 성교통이 있으며 분만 과정에 장애를 유발한다[6,7]. 아울러 항문막힘증 교정술을 받은 후 혈자궁증(haematometra) 등 많은 부인과적 문제가 발생한다[8]. 그러나 동반 기형이 많은 고위형 항문막힘증을 제외한 대부분은 정상적인 성관계를 갖고 임신하는 것이 가능하다[7]. 현재 항문막힘증의 교정수술을 받은 여성 중 임신과 분만을 경험하는 수가 점점 증가하고 있다[9,10]. 그러나 교정수술을 받은 병력이 있는 산모의 분만에 대한 지침은 확실한 근거를 기반으로 마련되어 있지 않다[3]. 다만, 교정수술의 합병증이 임신 및 질식분만에 미치는 영향이 없고 예상되는 방광이나 장의 기능 이상이 없어 질식분만에 금기가 되지 않는다면 질식분만하는 것이 추천된다[2]. 하지만 항문막힘증 교정술을 받은 성인에서의 산과적 합병증을 파악하고자 하는 합의된 기준이나 산과적 영향에 대한 문헌은 거의 없으며 제왕절개술의 적응증이 되지 않는 경우 과연 분만방법을 어떻게 할지는 현재 논쟁 중에 있다[4]. 질식분만이 시행하기 어려울 수 있고 이미 교정된 상태를 악화시킬 수 있어 제왕절개술을 시행해야 한다는 주장과 이전 수술로 인한 유착과 정상인에 비해 복잡한 해부학적 구조로 인해 제왕절개술이 질식분만보다 오히려 어려울 수 있다는 주장이 대립되고 있다[4]. 실제 대부분의 산부인과 의사는 항문막힘증을 포함해 항문직장기형으로 교정수술을 받은 산모들을 제왕절개로 분만하기를 선호한다[3-5].

이처럼 항문막힘증 교정술의 병력이 있는 환자들에서 가장 주된 문제는 질식분만이 가능할지를 결정하는 것이다[9]. 만약 자궁하부의 협착이 의심될 경우에는 질식분만이 아닌 제왕절개술이 시행되어야 하며, 광범위한 수술을 받았거나 여러 단계에 걸쳐 수술을 받았다면 질식분만뿐 아니라 제왕절개술을 시행하기도 어려울 수 있으며 비뇨기과와 외과가 포함된 다전문영역(multidisciplinary)의 팀이 필요할 수도 있다[9].

이 증례의 산모는 초음파검사상 태아의 CCAM 소견이 관찰되어 본 병원으로 전원된 환자이다. 산모는 전원 후 시행한 검진에서 회음부 이상 소견이 발견되었고 보호자를 통해 환자 자신도 모르고 있던 항문막힘증으로 교정수술을 받은 과거력을 확인하였다. 추가로 보호자를 통해 교정수술 당시 동반 기형이 없었음을 확인하였으나 항문막힘증의 유형과 교정 수술방법에 대해서는 정확히 알지 못하였으며, 당시 기록을 찾을 수도 없었다. 본 저자들은 산전 진찰 및 검사상 실시한 신체검진 및 질식 초음파검사 및 질경검사를 통해 자궁하부 협착 등 산도의 이상이나 다른 동반 기형 및 비뇨기계, 소화기계의 기능 이상이 없음을

확인 후 질식분만을 시행하였다. 항문이 질 입구에 가까이 위치하여 회음절개술 없이 분만하였으며 분만도중 질벽의 우외측에 1 cm의 열상이 발생하여 봉합하였다. 이외의 다른 후유증 없이 질식분만은 완료되었고 산모는 문제없이 예정대로 퇴원하였다.

항문막힘증 교정수술 병력을 가진 산모의 분만을 보고한 다른 증례들에서는 질벽의 4° 열상 발생 가능성과 다른 감별되지 않은 동반 기형 및 합병증의 발생에 대한 우려로 인해 제왕 절개술을 시행하였다[11]. 그러나 Greenwell 등[12]에 따르면 이전 항문직장기형을 포함한 다른 선천 기형으로 하부요로재건술(lower urinary tract reconstruction) 등의 교정술을 받았던 병력이 있는 산모들 중 제왕절개술의 적응증이 되지 않아 질식분만을 했을 때 대부분의 산모(91%)에서 합병증이 발생하지 않았다.

이에 저자들은 항문막힘증의 교정수술 병력이 있는 산모에서 질식분만의 금기증이 없어 질식분만에 성공한 1예를 경험하였기에 간단한 문헌고찰과 함께 국내 최초로 보고하는 바이다.

References

1. Waters EG. Cloacal dysgenesis: related anomalies and pregnancies. *Obstet Gynecol* 1982;59:398-402.
2. Breech L. Gynecologic concerns in patients with anorectal malformations. *Semin Pediatr Surg* 2010;19:139-45.
3. Rintala RJ, Pakarinen MP. Outcome of anorectal malformations and Hirschsprung's disease beyond childhood. *Semin Pediatr Surg* 2010;19:160-7.
4. Salvi N, Arthur I. A case of successful pregnancy outcome in a patient born with cloacal malformation. *J Obstet Gynaecol* 2008;28:343-5.
5. Johnson R, Slade P. Does fear of childbirth during pregnancy predict emergency caesarean section? *BJOG* 2002;109:1213-21.
6. Hall R, Fleming S, Gysler M, McLorie G. The genital tract in female children with imperforate anus. *Am J Obstet Gynecol* 1985;151:169-71.
7. Rintala RJ, Pakarinen MP. Imperforate anus: long- and short-term outcome. *Semin Pediatr Surg* 2008;17:79-89.
8. Warne SA, Wilcox DT, Creighton S, Ransley PG. Long-term gynecological outcome of patients with persistent cloaca. *J Urol* 2003;170:1493-6.
9. Appiah-Sakyi K, Abdel-Aty M. Childbirth following previous repair of an imperforate anus. *J Obstet Gynaecol* 2009;29:62-3.
10. Greenberg JA, Hendren WH. Vaginal delivery after cloacal malformation repair. *Obstet Gynecol* 1997;90:666-7.
11. Vordermark JS, Deshon GE, Agee RE. Management of pregnancy after major urinary reconstruction. *Obstet Gynecol* 1990;75:564-7.
12. Greenwell TJ, Venn SN, Creighton S, Leaver RB, Woodhouse CR. Pregnancy after lower urinary tract reconstruction for congenital abnormalities. *BJU Int* 2003;92:773-7.

항문막힘증 교정술 병력을 가진 산모의 질식분만 1예

서울대학교 의과대학 산부인과학교실

김혜영, 김은진, 강민지, 박찬욱, 박중신, 전종관

항문막힘증(쇄항) 병력을 가진 여성은 질식분만의 금기증에 해당되지 않는 경우라면 질식분만을 진행하도록 권장된다. 그러나 이와 같은 결정 이전에는 반드시 회음부가 질식분만을 하기에 적합한지 산과의사에 의한 평가가 선행되어야 한다. 저자들은 다른 합병증이 동반되지 않았으며 질식분만의 금기증 없이 질식분만을 성공적으로 시행한 항문막힘증 교정술 병력을 가진 환자 1예를 경험하였기에 간단한 문헌고찰과 함께 국내 최초로 보고하는 바이다.

중심단어: 항문막힘증(쇄항), 교정, 질식분만