CASE REPORT
Korean J Obstet Gynecol 2011;54(2):99-102
doi: 10.5468/KJOG.2011.54.2.99
pISSN 2233-5188 · eISSN 2233-5196

KOREAN JOURNAL OF OBSTETRICS & GYNECOLOGY

# CESAREAN DELIVERY WITH POSTNATAL HIGH-FREQUENCY VENTILATION IMMEDIATELY AFTER THORACOCENTESIS FOR A FETUS WITH INTRACTABLE CONGENITAL CHYLOTHORAX

Gwang Jun Kim, MD[1], Eun Sil Lee, MD[2]

[1]Department of Obstetrics and Gynecology, Chung-Ang University College of Medicine, Seoul; [2]Department of Obstetrics and Gynecology, Incheon St. Mari's Hospital, The Catholic University of Korea School of Medicine, Incheon, Korea

We experienced a case of fetus with congenital chylothorax who treated with thoracocentesis immediately followed by cesarean delivery with high frequency ventilation therapy after treatment failure by serial thoracocentesis and pleurodesis with OK-432. This approach achieved an effective control. So we suggest that cesarean delivery along with postnatal high-frequency ventilation immediately after thoracocentesis can be considered in a fetus with intractable congenital chylothorax.

**Keywords:** Chylothorax, Thoracocentesis, OK-432

태아 흉막 삼출은 10,000–15,000명당 1명의 빈도로 발생하며 태아의 폐를 압박하여 폐 저형성증(pulmonary hypoplasia)을 유발할 수 있다[1]. 임상경과는 자연소실 되기도 하지만 진행되어 태아수종과 양수과다, 조기진통 및 자궁 내 태아사망을 일으키기도 하는 등 매우 다양하다[2]. 자궁 내 태아 치료 방법으로는 흉강천자술, 흉강양막지름술(pleura–amniotic shunting) 및 흉막유착술(pleurodesis) 등이 소개되었다[3–5]. 저자들은 선천성 갑상선 기능저하에 동반되어 발생된 태아수종을 동반한 중증 선천성 유미흉 태아 치험례를 경험하였다. 저자들은 이 태아에서 자궁 내 치료로서 반복 흉강천자와 OK–432를 이용한 흉막유착술을 시도하였으나 실패하였으며, 흉강천자술을 실시한 직후 흉강 내 삼출액이 차오르기 전에 제왕절개술을 시행하여 출산한 후 고빈도양압환기법을 사용하여 치료함으로써 성공적으로 치료한 예를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

**환 자:** 김 O 숙, 34세
**산과력:** 0–1–3–0 (자궁 내 태아 사망으로 조기분만 1회, 자연유산 1회, 인공유산 2회)
**월경력:** 초경은 15세에 있었고 월경량은 보통이었으며 기간은 5–6일이었고 주기는 30–35일 주기였다.
**가족력 및 과거력:** 특이 사항 없었다.
**수술력:** 3년 전 자궁 내 태아사망으로 자궁절개술 시행받았다.
**주소 및 현병력:** 개인병원에서 산전진찰 받던 산모로 초음파검사에서 양측성 흉막 삼출 발견되어 3차 진료기관인 본원으로 임신 31주 4일에 전원되었다. 이전 임신에서 자궁 내 태아 사망의 산과력 있어 임신 17주에 양수천자 시행한 결과는 정상 염색체 소견이었고, 임신 22주에 시행한 정밀 초음파에서도 특이 소견 없었으며 이후 시행한 산전 진찰에서도 비정상 소견 없이 관찰하다가 임신 30주에 양측성 흉막삼출이 발견되었고 이후 추적검사에서 삼출액 증가되어 전원되었다.
**이학적 검사 소견:** 입원 시 혈압, 맥박, 체온 및 호흡수는 정상이었으며, 다른 이학적 검사상에도 특이소견은 없었다. 내진상 자궁경부는 닫혀

Received: 2010.11. 8. Accepted: 2011. 1. 3.
Corresponding author: Gwang Jun Kim, MD
Department of Obstetrics and Gynecology, Chung-Ang University College of Medicine, 224-1 Heukseok-dong, Dongjak-gu, Seoul 156-755, Korea
Tel: +82-2-6299-1656 Fax: +82-2-6263-2187
E-mail : gjkim@cau.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 © 2011. Korean Society of Obstetrics and Gynecology

**Fig. 1.** Fetal ultrasonography showing bilateral pleural effusion and skin edema.

**Fig. 2.** After intrapleural injection of OK-432 at $32^{+2}$ weeks of gestation. No residual intrathoracic fluid was observed.

있었다.

초음파 소견: 태아의 머리둘레는 30 cm (50%), 복부둘레 32.4 cm (>97%), 대퇴골 길이 5.9 cm (10–50%), 예상 체중 2,410 g (>90%)이었고 양수량 지수는 24 이상으로 양수 과다증 소견 보였다. 양측 흉곽 내 중등도의 흉수가 보였고 피부의 부종 소견이 관찰되었다(Fig. 1).

검사실 소견: 초음파 유도하 양수천자(80 mL) 및 태아의 흉강 천자를(50 mL) 시행하였다. 양수 및 흉수 내 rubella, parvovirus, toxoplasma, herpes simplex virus, varicella zoster, cytomegalovirus에 대한 polymerase chain reaction (PCR) 또는 reverse transcription (RT)–PCR 또는 항체검사 및 균배양검사 시행 결과 모두 음성 소견 보였고, 흉강 천자 결과 림프구가 우세한(97%) 흉수 소견 보여 유미흉으로 진단하였다.

임상 경과: 흉막천자 5일 후 실시한 추적 초음파검사에서 흉수가 다시 증가하여 임신부 및 남편에게 태아 흉막강 내 OK–432 투여에 대하여 설명하고, 동의서 작성 후 임신 32주 2일에 우측 흉막강에서 60 mL

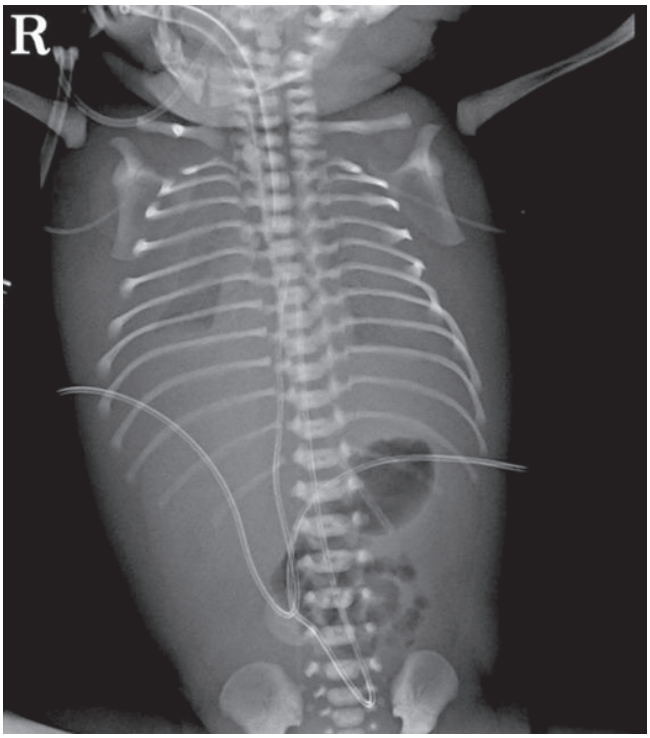


**Fig. 3.** Chest X-ray image of the neonate at birth.

의 흉강천자 후 0.28 mg의 OK–432를 투여하였고, 좌측 흉막강에서 74 mL의 흉강천자 후 0.28 mg의 OK–432를 투여하였다(Fig. 2). 2일 경과 후 양측 흉막강 내 흉수가 다시 증가하는 소견 보였고, 피하부종이 악화되는 소견을 보였다. 보호자와 상의 후 흉막강 천자를 시행 한 직후 다시 흉수가 차오르기 전 태아의 폐가 확장된 상태에서 제왕절개술을 시행하기로 하였다.

수술 소견: 흉강천자 직후 전신 마취하에 제왕절개술을 시행하여 2,720 g의 남아를 분만하였다. 아프가 점수는 1분 2점, 5분 5점이었고 출생 즉시 촬영한 흉부 단순 사진에서 흉막 삼출은 거의 관찰되지 않았다(Fig. 3).

신생아 경과: 흉수가 다시 증가될 가능성을 고려하여 고빈도 양압 환기를 적용하였으며, 출생 후 2일 째 태아의 흉수가 다시 증가하는 양상을 보여 양측 흉관 삽입을 시행하였다.

신생아 선별검사에서 갑상선 기능저하증 소견 보여 갑상선 호르몬을 보충하기 시작하였고 산모와 아기에서 시행한 항갑상선 항체 검사는 모두 음성 소견을 보였다. 생후 20일에 호흡기를 제거하였고 환아는 현재 9개월로 폐기능은 정상적이나 경도의 지적 발달 장애 소견을 보였다.

## 고 찰

선천성 유미흉을 포함한 흉막삼출은 태아에서 폐 저형성증을 유발하기도 하고 중증 호흡부전의 원인이 되기도 하여 흉막삼출이 있는 태아

에서의 주산기 사망률이 적어도 50% 이상으로 보고된다[6].

흉막삼출이 임신 34주 이전에 발견된 경우, 반복흉강천자와 흉양막강지름술 등의 치료방법이 고려된다. 특히 태아수종이 동반된 흉막삼출의 경우 흉양막강지름술이 가장 적합한 치료법으로 제시되기도 하였다[3]. 그러나 흉강천자 시 다시 흉수가 빠르게 차오를 수 있고, 흉양막강지름술의 경우 지름관의 위치변화로 빠지거나 막힐 수 있고, 감염, 출혈, 태아손상, 조기양막파열 및 조산의 합병증을 유발하는 단점이 있다 [7].

최근 흉막강 내에 OK–432를 투여하는 방법이 보고된 이후[8, 9], 치료에 성공한 예들이 보고되었고, 특히 중등도의 태아수종을 동반한 경우에서도 성공한 예가 보고된 바 있다[10,11]. 저자들도 OK–432 투여를 이용한 치료를 시도하였으나 실패하였다. 한편 Kessel 등[12]은 선천성 갑상선 기능저하증이 유미흉 및 태아수종의 원인이 될 수 있다고 보고하였는데, 저자들의 증례에서 OK–432 투여가 실패한 이유로 태아의 선천성 갑상선 기능 저하증을 의심하지 못하여 이를 교정하지 않았기 때문임을 고려해볼 수 있다. 따라서 비면역성 태아수종을 보이는 태아의 평가 시 선천성 감염과 염색체 이상의 원인 이외에도 선천성 갑상선 기능 저하증에 대한 검사가 병행될 필요가 있다고 여겨진다.

저자들은 선천성 갑상선 기능저하증 태아에서 발생된 유미흉을 흉강천자술에 이은 OK–432 흉막유착술 실패 후에 흉강천자로 흉수를 제거한 뒤 다시 흉수가 차올라 폐를 압박하여 위축시키기 전에 제왕절개술을 시행하였다. 출생 후 폐수종이 흉부촬영상 나타나지 않을 정도로 감소되어 고빈도 양압환기술을 시행할 수 있었다. 본 태아는 태아수종이 동반되었고, 양측 흉강에 다량의 삼출액이 고인 중증 유미흉으로써 산전에 흉수를 제거하지 않은 상황에서 분만하였다면 양압환기술 자체를 시도하기 어려울 정도로 예후가 나빴을 것으로 여겨진다.

본 증례에서 얻은 경험으로 볼 때 여러 치료 방법에 잘 듣지 않는 유미흉의 처치 방법에 있어, 흉강천자로 흉수를 제거하여 폐를 확장시킨 후, 다시 차오르기 전에 제왕절개수술을 시행하여 출산하고 고빈도 양압환기술을 적용하는 방법이 하나의 대안이 될 수 있다고 여겨진다.

## References

1. Chen M, Shih JC, Wang BT, Chen CP, Yu CL. Fetal OK-432 pleurodesis: complete or incomplete? Ultrasound Obstet Gynecol 2005;26:791-3.
2. Aubard Y, Derouineau I, Aubard V, Chalifour V, Preux PM. Primary fetal hydrothorax: a literature review and proposed antenatal clinical strategy. Fetal Diagn Ther 1998;13:325-33.
3. Rustico MA, Lanna M, Coviello D, Smoleniec J, Nicolini U. Fetal pleural effusion. Prenat Diagn 2007;27:793-9.
4. Longaker MT, Laberge JM, Dansereau J, Langer JC, Crombleholme TM, Callen PW, et al. Primary fetal hydrothorax: natural history and management. J Pediatr Surg 1989;24:573-6.
5. Weber AM, Philipson EH. Fetal pleural effusion: a review and meta-analysis for prognostic indicators. Obstet Gynecol 1992;79:281-6.
6. Okawa T, Takano Y, Fujimori K, Yanagida K, Sato A. A new fetal therapy for chylothorax: pleurodesis with OK-432. Ultrasound Obstet Gynecol 2001;18:376-7.
7. Tanemura M, Nishikawa N, Kojima K, Suzuki Y, Suzumori K. A case of successful fetal therapy for congenital chylothorax by intrapleural injection of OK-432. Ultrasound Obstet Gynecol 2001;18:371-5.
8. Jorgensen C, Brocks V, Bang J, Jorgensen FS, Ronsbro L. Treatment of severe fetal chylothorax associated with pronounced hydrops with intrapleural injection of OK-432. Ultrasound Obstet Gynecol 2003;21:66-9.
9. Nygaard U, Sundberg K, Nielsen HS, Hertel S, Jorgensen C. New treatment of early fetal chylothorax. Obstet Gynecol 2007;109:1088-92.
10. Kurtz TW, Hsu CH. Resolution of chylothorax after positive end-expiratory pressure ventilation. Arch Surg 1980;115:73-4.
11. Lindhorst E, Miller HA, Taylor GA, Gotzen L. On the possible role of positive end-expiratory pressure ventilation in the treatment of chylothorax caused by blunt chest trauma. J Trauma 1998;44:540-2.
12. Kessel I, Makhoul IR, Sujov P. Congenital hypothyroidism and nonimmune hydrops fetalis: associated? Pediatrics 1999;103:E9.

## 흉강천자 직후 제왕절개술 및 고빈도양압환기를 이용한 저항성 선천성 유미흉 태아 치료 1예

[1]중앙대학교 의과대학 산부인과학교실, [2]가톨릭대학교 의과대학 인천성모병원 산부인과
김광준[1], 이은실[2]

저자들은 갑상선기능저하증에 동반된 중증 선천성 유미흉 태아 1예를 경험하였다. 이 태아의 흉수는 초음파 유도에 의한 자궁 내 흉강천자술과 OK-432를 사용한 흉막유착술을 시행하였으나 반응하지 않고 다시 차올랐으므로, 저자들은 흉강천자 직후 흉수가 다시 차올라 폐를 압박하기 전에 제왕절개술로 분만한 뒤 고빈도양압환기를 적용하였다. 본 증례의 경험으로부터 저자들은 선천성 유미흉의 원인적 검사에 태아 갑상선기능 상태가 고려되어야 하고, 일반적인 처치에 반응을 안 할 경우 흉강천자 후 즉각적인 제왕절개술로 출생하여 신생아 처치를 하는 것이 하나의 대안이 될 수 있다고 제시하는 바이다.

**중심단어:** 유미흉, 흉강천자, OK-432