

자궁강내 인공수정 후 단각자궁 비소통 흔적 자궁에 임신된 환자의 자궁 파열 및 태아 생존 1예

제주대학교 의학전문대학원 산부인과학교실

강혜심·심순섭

A Case of Live Birth in a Non-communicating Rudimentary Horn Pregnancy and Rupture after Intrauterine Insemination

Hye Sim Kang, M.D., and Soon Sup Shim, M.D., Ph.D.

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

Rudimentary horn is a rare uterine anomaly and pregnancy in the rudimentary horn is an extremely rare condition. We report a case of live birth in a non-communicating rudimentary horn pregnancy and rupture. The pregnancy was successfully delivered by cesarean section, with neonatal and maternal survival.

Key Words : Live birth, Pregnancy, Rudimentary horn, Rupture

여성의 생식기 계통의 발생은 태생 6주 말에서 16주 사이에 이루어지며 뿔리관과 비뇨생식굴(urogenital sinus)의 발달 및 융합과정에 이상이 생겨 자궁과 질에 선천성 기형이 생기는 것을 뿔리관 기형이라고 한다. 최근 영상기술의 발달로 진단되는 경우가 많아지고는 있으나 뿔리관 기형의 경우 특별한 문제가 없으면 발견되지 않는 경우가 많아 유병률과 합병증에 대해 다양하게 보고되며 대략 0.1-3% 정도로 발생한다고 알려져 있다.^{1,2}

뿔리관 기형 중 단각자궁(unicornuate)은 매우 드문 형태로 뿔리관 중 하나가 완전 또는 불완전하게 발달을 멈추었을 때 발생하는 기형으로 한 쪽은 정상적인 자궁 체부 및 경부와 난관을 가지고 나머지 다른 쪽은 무형성 혹은 흔적 자궁의 형태를 갖으며 이러한 흔적 자궁(rudimentary horn)은 90% 이상에서 자궁강과 소통이 없다.³ 흔적 자궁의 임신은 76,000-150,000명당 1명의 빈도로 매우 드물게 발생하는 자궁외임신의 형태로 복강내 임신의 경우

보다 10배 이상 드물게 보고된다.⁴ 대부분 복강출혈로 시험적 개복술을 시행하던 중 우연히 진단되는 경우가 많고 약 5% 정도만 수술 전에 진단되었으며,³ 임신 20주 이전에 자궁 파열이 흔하게 일어나 신생아 생존율이 5% 정도로 보고되며 모성사망률 또한 높다.⁴

저자들은 자궁강내 인공수정(intrauterine insemination)으로 임신 후 추적검사 중 단각자궁의 흔적 자궁 임신으로 임신 29주 2일에 자궁 파열로 응급개복술 후 태아 생존을 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

환자 : 김○나, 29세

산과력 및 월경력 : 0-0-0-0, 마지막 월경 시작일은 2010년 4월 2일, 월경주기는 불규칙하였으며 생리량은 보통이었다.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없었다.

주소 및 현병력 : 임신 25주 2일에 자궁 수축이 지속되어 응급실로 내원 후 조기 진통 의심하에 입원하였다. 산모는 타 지역에서 시행한 불임검사로 나팔관조영술에서 단각자궁으로 진단받았으며 오른쪽으로 자궁조영제가 주입

접수 : 2013년 4월 8일, 수정 : 2013년 6월 18일
승인 : 2013년 6월 21일
책임저자 : 심순섭, 690-716 제주도 제주시 아란 13길 15
제주대학교병원 산부인과
전화 : 064)717-1820, 전송 : 064)717-1131
E-mail : pompous21@naver.com

되지 않았다고 하였고, MRI 검사상 비뇨기계 기형 등 다른 이상소견은 없었다고 했다. 과배란유도 및 인공수정으로 임신이 되었으나 오른쪽 흔적 자궁에 임신되었다. 산전 검사상 퀵드 검사에서 다운증후군 위험도 1:10으로 양수 검사를 시행, 정상 염색체 소견을 보였고 이후 연고지 문제로 임신 17주 6일에 본원 전원되었다. 초음파 검사상 자궁 경부는 왼쪽의 자궁내막과 연결되어 보였으며 태아는 오른쪽 자궁에 있었다. 추적 관찰 중 규칙적인 자궁 수축이 발생하여 응급실 방문하였다.

경과: 입원 후 규칙적인 자궁 수축이 있어 자궁수축 억제제 라보파® (JW Pharmaceutical, Seoul, Korea)를 사용하였고 이후 수축은 없었으나 오른쪽으로 복부불편감을 지속적으로 호소하여 충수돌기염을 배제하기 위해 복부 초음파를 실시하였으나 오른쪽의 경한 수신증 소견 외에는 특이소견 보이지 않았다. 임신 28주 2일 지속적으로 자궁수축 보이지 않아 라보파® 주입을 중단하고 경과관찰하다가 임신 28주 5일 다시 자궁수축 보여 라보파®를 사용하였다. 임신 29주 2일째 급작스럽게 심한 복통 호소하였고 혈압 89/56 mmHg, 맥박 111회/분 보여 자궁과열 의심하여 응급 개복술을 시행하였다.

수술 소견: 전신마취하에 수술 시작하였고 복강 내 혈

액이 관찰되었고 자궁 뒤쪽으로 다량의 혈액이 고여있었다. 왼쪽 자궁은 정상 크기였고 오른쪽 자궁은 커져있으며 뒤쪽 장막에 1 cm 정도 파열되어 출혈되고 있는 것이 관찰되었고 자궁절개후 태아를 분만하였다(Fig. 1). 이후 태반이 분리되지 않아 오른쪽 자궁 전체를 제거하였고 제거 당시 남은 자궁과의 연결통로는 없었다. 동측 난관 및 난소는 남겨두었으며 수술 중 농축 적혈구 7 pack, 신선동결혈장 3 unit 수혈하였다.

수술 후 경과: 산모는 수술후 1일째 혈색소 11.1 g/dL, 5일째 10.3 g/dL으로 별 문제 없이 수술 후 7일째 발사 후 퇴원하였다.

태아는 체중 1,460 g, 아프가 점수 1분 4점, 5분 6점으로 분만 직후 분만 신생아중환자실로 전원되었고 신생아 호흡곤란증후군으로 Curosurf® (Chiesi, Italy) 및 10일간 인공호흡기를 사용하였다. 1등급 정도의 뇌실내 출혈 있어 경과관찰 하였으나 더 이상의 진행소견은 없었다. 오른쪽 서혜부 탈장으로 생후 5개월에 수술하였고 현재 29개월로 언어발달 지연외에는 특이소견 없이 성장중이다. 산모는 출산 후 1년이 지나 남아있는 왼쪽 자궁내로 임신되어 2013년 1월 임신 36주 6일에 제왕절개술로 둘째아이를 분만하였다.

고 찰

여성 생식기 계통의 발생 과정이 정상적으로 이루어지지 않을 경우 선천성 자궁기형이 발생할 수 있으며 1988년 미국생식의학회(American Fertility Society, AFS)의 분류에 따라 무형성증 또는 발육 부전(class I, Hypoplasia/agenesis), 단각자궁(class II, Unicornuate), 중복자궁(class III, Didelphus), 쌍각자궁(class IV, Bicornuate), 중격자궁(class V, Septate), 궁상자궁(class VI, arcuate), diethylstilbestrol 노출(class VII)로 나뉜다. 이 중 단각자궁은 뿔러관 중 하나가 완전 또는 불완전하게 발달이 멈추고 반대측과 부적절하게 융합되어 발생하는 것으로 정상적인 자궁 체부 및 경부, 난관을 갖는 한쪽과는 다르게 나머지 한 쪽은 자궁체부가 부분적으로 발달되어, 비소통성 흔적 자궁을 갖는 경우가 대부분이다.^{3,4}

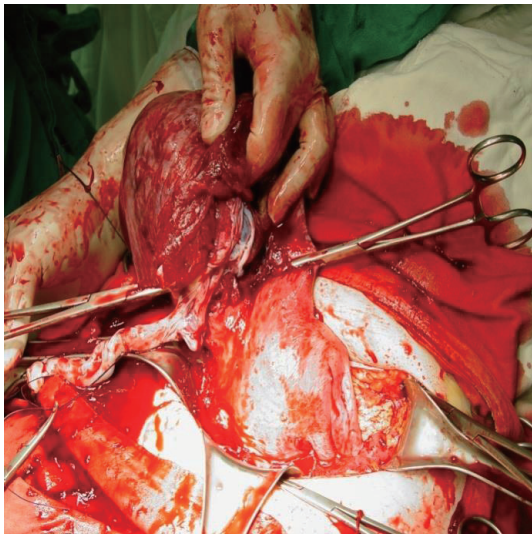


Fig. 1. Clinical photography showing the uterus with the rudimentary horn and placenta in situ attached to its right border.

단각자궁의 불임률은 23.7%로 보고되며, 산과적 예후에 관해서는 Grimbizis 등이 유산율 16.4%, 조산율 55.1%, 생존아출생률을 55.1% 정도로 보고하였다.⁵ 또한 약 40%정도에서 흔적자궁 쪽으로 요로계 기형을 동반한다고 보고되었다.⁶

국내에서 선천성 자궁기형은 20주 이상 지속된 산모에서의 빈도가 0.4%, 입원 및 외래 환자 중에서는 0.075%에서 0.13%로 다양하게 보고되며 이는 타 병원으로부터 의뢰되는 환자가 매우 많은 대형병원에서 이루어진 연구 결과이며, 또한 선천성 기형 자체가 워낙 진단하기 쉽지 않을 뿐 아니라 증상이 없거나 관심을 기울이지 않은 경우 진단이 어려워 생기는 결과로 외국에서도 다양한 빈도로 보고되는 이유와 같은 맥락으로 이해된다.^{7,8}

흔적 자궁의 임신은 자궁외 임신의 매우 드문 형태로 76,000-150,000명당 1명의 빈도로 보고되는데 단각자궁의 빈도도 드물지만, 단각자궁의 대부분에서 흔적 자궁은 나머지 자궁과 소통이 없기 때문이다. 따라서 흔적 자궁에 임신이 되는 기전으로 난자, 정자 또는 수정란이 복강내로 이동하는 것으로 설명하고 있다.³ 본 증례에서는 자궁강내에 정자주입술 시행 후, 나팔관 조영술 검사에서 소통이 없는 것으로 보였던 오른쪽 흔적자궁에 임신되었다. 흔적자궁 임신은 유산, 조산, 자궁내 태아성장지연, 비정상 태위, 자궁파열의 빈도가 높을 뿐 아니라 증상이 늦게 보이고 진단이 쉽지 않아 대체로 예후는 좋지 않은 것으로 알려져 있다. 임신 초 유산은 비정상적인 자궁 형태로 인하여 자궁 근육이 부족하여 자궁용적이 감소해 발생하는 것으로 생각되며, 자궁경부 무력증이 생기거나 수정란이 착상되는 자궁 저부의 혈액공급 감소로 태아 손실이 생긴다는 견해도 있다. 조기분만 역시 이와 비슷한 이유로 설명하며 자궁파열의 경우 자궁의 근육층이 정상자궁에 비해 얇을 뿐 아니라 임신 주수가 진행함에 따라 더욱 얇아지며 또한 자궁 두께가 전체적으로 고르지 않아 생기는 것으로 설명한다.⁷ 그리고 상대적으로 근육의 용적이 작고 확장력이 떨어지므로 흔적 자궁의 임신은 태아 기형, 양수과소증 등이 잘 생길 수 있고 콩팥 기형이 동반되는 경우가 있어 임신중독증과의 연관성이 보고되기도 하였으나 본 증례에서는 산모에게서 요로계 기형이나 임신중독증은 관찰되지 않았다.

흔적 자궁 임신의 파열은 80-90%가 임신 2삼분기에 발생하고 특히 태아 생존률은 2-5%정도에 불과하다.⁹ 대부분 급성 복통과 함께 다량의 복강내 출혈을 일으키는 응급상황으로 산모와 태아 모두 사망률이 높다. 모성사망률에 대해서는 19세기만 해도 88%까지 보고되었으나 최근 파열이 50% 이상 일어나도 모성사망은 0.5% 미만으로 보고된다.¹⁰ 국내에서 보고된 흔적자궁 임신은 대부분 임신 초기 자궁파열과 함께 진단된 경우가 대부분이며, 임신 28주 및 35주에 자궁파열로 진단된 경우가 보고되었으나 모두 태아는 생존하지 못하였다.^{11,12} 자궁 파열 전 진단하여 임신 28주 2일, 임신 33주 1일에 각각 복통 혹은 조기진통의 증상으로 파열 전 응급 제왕절개술로 생존 태아를 분만한 경우가 보고되었다.^{13,14}

흔적 자궁을 갖는 단각자궁의 진단은 임신 전에는 자궁난관 조영술, 자궁경, 또는 복강경 등으로 이루어지며 임신한 이후에 초기에 진단하기는 쉽지 않지만 초음파를 통해 진단할 수 있다. 초기진단이 어려워 대부분의 경우 후향적으로 진단되는데 이는 난관 임신에 비해 태낭이 주위 자궁근육층에 의해 보호받다가 늦게 발견되어 결국 임신이 진행되다가 자궁파열에 이르게 되고, 임신중기에 이르면 증상이 비특이적이게 되므로 진단이 더욱 어려워져 대부분 복강내 자궁 파열이 있고 응급 개복술 중에 발견되는 경우가 많은 것이다. Chopra 등이 2009년 발표한 12 증례의 흔적자궁 임신 중, 내과적 임신 종결의 실패 후 발견된 2예를 제외한 10예에서 복부 통증 및 혈복강이 의심되어 응급수술을 통해 진단되었다.¹⁵ 그러나 산전에 진단되었다고 해도 자궁파열의 시기를 예측할 수 없으므로 수술적 치료의 시기를 결정하는 것은 매우 어렵다. 단각자궁의 흔적 자궁의 임신은 매우 드물기 때문에 특별한 치료지침이 정해져있지는 않다. 임신 전에 진단되었다면 흔적 자궁 절제술이 추천되며, 임신한 경우 대부분 외과적 절제가 원칙으로 아직 파열되기 전이어도 진단되는 즉시 수술하는 것을 권유하기도 하지만, 충분한 자궁근육을 가지거나 응급수술이 언제라도 가능한 센터에서는 산모에게 충분한 설명 후 태아가 생존 능력을 가질 때까지 보존적 치료를 하는 것도 가능하다.¹⁶ 수술적 치료 방법으로는 흔적자궁 절제로 기능적 자궁을 보존하는 것이 원칙이나 출혈이 심한 경우는 자궁절

제가 필요할 수 있다. 수술 시 동측의 난관절제술이 이후의 자궁외 임신의 빈도를 줄이기 위해 권유되기도 하고 생식력 보존을 원하는 경우에는 난소를 남기는 것을 권유하기도 하나 부속기 수술에 대해서는 아직 논란의 여지가 있다.¹⁰ 본 증례에서는 흔적자궁의 임신을 확인하였으나 경과 관찰하였고 복통이 있어 입원하여 관찰하였다. 자궁 수축 시 수축억제제인 라보파[®] 사용과 중단을 반복 하던 중 임신 29주 2일에 심한 복통을 호소하여 자궁파열을 의심, 즉시 개복술을 시행하였으며 수술 소견상 자궁 파열은 보였으나 태어나 태반은 아직 분리되지 않아 생존 태아 분만 후 태반과 함께 흔적자궁을 절제하였다. 동측 난관 및 난소는 보존하였으며 산모는 1년이 지나고 다시 기능적 자궁에 임신이 되어 둘째 아이를 분만하였다.

흔적자궁의 임신은 수술시에만 확인할 수 있으며 또한 진단이 되어도 치료시기를 결정하는 것은 매우 어렵다. 그렇지만 조기 진단이 가장 중요하며 또한 임신 주수, 흔적자궁의 용적, 태아상태 등이 치료적 분만 시기를 결정하는데 고려되어야 하고 만약 보존적치료를 하고자 하는 경우에는 세심한 산모 및 태아관찰이 필요할 것이다. 본 저자들은 자궁강내 인공수정 후 단각자궁의 비소통적 흔적자궁에 임신 및 생존태아 분만과 흔적자궁 절제술 이후 정상임신과 분만까지 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- Golan A, Langer R, Bukovsky I, Caspi E. Congenital anomalies of the müllerian system. *Fertil Steril* 1989;51:747-55.
- Green LK, Harris RE. Uterine anomalies. Frequency of diagnosis and associated obstetric complications. *Obstet Gynecol* 1976;47:427-9.
- O'leary JL, O'leary JA. Rudimentary horn pregnancy. *Obstet Gynecol* 1963;22:371-5.
- Nahum GG. Rudimentary uterine horn pregnancy. A case report on surviving twins delivered eight days apart. *J Reprod Med* 1997;42:525-32.
- Grimbizis GF, Camus M, Tarlatzis BC, Bontis JN, Devroey P. Clinical implications of uterine malformations and hysteroscopic treatment results. *Hum Reprod Update* 2001; 7:161-74.
- Fedele L, Bianchi S, Agnoli B, Tozzi L, Vignali M. Urinary tract anomalies associated with unicornuate uterus. *J Urol* 1996;155:847-8.
- Ku YH, Kim KW, Han JH, Park HS, Park CW, Park JS, et al. The pregnancy outcome of women with congenital uterine anomaly exceeding 20 weeks of gestation. *Korean J Obstet Gynecol* 2007;50:735-40.
- Jeon GH, Park YR, Shin YJ, Kim SH, Chea HD, Kim CH, et al. Clinical characteristics of women with Mullerian anomaly: Twenty years of experience at Asan Medical Center. *Korean J Obstet Gynecol* 2010;53:626-32.
- Rolen AC, Choquette AJ, Semmens JP. Rudimentary uterine horn: obstetric and gynecologic implications. *Obstet Gynecol* 1966;27:806-7.
- Jayasinghe Y, Rane A, Stalewski H, Grover S. The presentation and early diagnosis of the rudimentary uterine horn. *Obstet Gynecol* 2005;105:1456-67.
- Seo KW, Lee KH, Lee HH, Yim KB, Lee KM, Nam KH, et al. A case of 28 gestational weeks pregnancy in rudimentary uterine horn. *Koeran J Perinatol* 2000;11:65-8.
- Seo JW, Lee JH, Park IS, Lee TH. A case of rupture of rudimentary uterine horn with 35 weeks gestation. *Korean J Obstet Gynecol* 1985;28:1729-31.
- Lee SM, Park IY, Shin JC, Kwon JY. A case of unruptured rudimentary uterine horn pregnancy at 28 weeks of gestation diagnosed by MRI. *Korean J Obstet Gynecol* 2009;52:1040-4.
- Yang SC, Kim HS, Yang JI, Hwang KJ, Ahn EJ, Lee EJ, et al. A case of unruptured non-communicating rudimentary horn pregnancy progressed to the third trimester of pregnancy. *Korean J Obstet Gynecol* 1999;42:184-8.
- Chopra S, Keepanasseril A, Rohilla M, Bagga R, Kalra J, Jain V. Obstetric morbidity and the diagnostic dilemma in pregnancy in rudimentary horn: retrospective analysis. *Arch Gynecol Obstet* 2009;280:907-10.
- Nahum GG. Rudimentary uterine horn pregnancy. The 20th century world wide experience of 588 cases. *J Reprod Med* 2002;47:151-63.

= 국 문 초 록 =

단각 자궁은 선천성 자궁 기형 중 매우 드문 형태로 특히 흔적 자궁의 임신은 자궁외 임신 중에서도 매우 드물어 76,000-150,000명당 1명의 빈도로 보고된다. 본 저자들은 인공수정 후 단각자궁의 비소통성 흔적자궁에 임신되었고 임신 29주 2일에 자궁파열되 었으나 생존 태아를 분만하였기에 이를 보고하고자 한다.

중심 단어 : 생존태아, 임신, 흔적 자궁, 파열