대한영상의학회지 2004;51:99 - 102

Nutcracker 현상을 보인 기립성 단백뇨: 증례 보고[1]

박노혁 · 송순영 · 이은자 · 김미성 · 박찬섭 · 김병길[2]

기립성 단백뇨는 신사구체 병변을 동반하지 않는 비교적 좋은 예후를 보이는 양성 질환으로서 그 원인에 대하여 여러 가지 가설이 있으나 아직 정확한 병인은 확립되어 있지 않다. 최근 무증상의 육안적 혈뇨의 원인 중 하나로 알려진 nutcracker 현상이 기립성 단백뇨의 중요한 원인중의 하나로 작용한다는 소수의 외국 보고가 있었으며 저자들은 기립성 단백뇨만을 주소로 내원하여 초음파검사와 정맥 촬영술에서 nutcracker 현상으로 진단된 12세된 여자환자를 보고하는 바이다.

기립성 단백뇨란 활동시에는 요단백이 나오지만, 안정상태에서 요검사를 시행했을 경우에는 요단백이 소실되는 증상을 말하며 아무런 증상없이 우연히 발견되는 단백뇨의 가장 흔한 원인으로서 한 보고에 의하면 우리나라 학생의 집단뇨 검사에서 단백뇨를 보인 환자의 55%가 기립성 단백뇨로 진단 되었다(1). 기립성 단백뇨의 원인에 대해서는 아직 분명하게 확립되어 있지 않으나 최근 무증상의 편측성 혈뇨의 원인으로서 잘 알려진 nutcracker 현상이 기립성 단백뇨의 중요한 원인중의 하나로서 관여한다는 소수의 외국 보고가 있으며(2 - 4), 국내 방사선학 관련 보고에서는 아직 찾을 수 없어, 최근 이러한 증례를 도플러 초음파검사와 정맥 조영술을 시행하여 진단하였기에 이를 보고하는 바이다.

증례 보고

12세 된 여자환자로 1개월전 시행한 학교 단체 신체검사에서 단백뇨가 발견되어 정밀 검사를 위해 내원하였으며 내원시 시행한 소변 검사에서 단백뇨 3+ (50mg/dl) 이었으며 적혈구는 검출되지 않았으며 그외의 소견도 정상 범위였다. 신기능 검사를 위해 시행한 BUN, creatinine 치는 각 각 11.8 mg/dl, 0.80 mg/dl 로 정상 범위였다. 기립성 단백뇨를 의심하여 잠들기 전 완전히 배뇨케 한후 받은 아침 첫 소변과 활동후의 소변내 단백뇨 검출 여부를 비교하여 기립성 단백뇨로 진단 하였다. 과거력상 환아는 신생아시 태변흡입으로 인한 호흡곤란으로 1주일간 입원 치료받은 것외에는 특이 소견이 없었다.

정밀 검사를 위해 신장 초음파 검사를 시행하였으며 환자는 앙와위로 누운상태에서 2 - 5 MHz 곡선형 (curvilinear) 탐촉자 (HDI 5000; ATL Inc, Bothell, Washington, U.S.A.)와 5 - 12 MHz 선형 (linear) 탐촉자 (HDI 5000; ATL Inc, Bothell, Washington, U.S.A.)를 사용하여 검사하였다. 양측 신장에서 국소 병변이나 신실질 에코 변화 소견등의 특이 소견은 보이지 않았으나 좌측 신정맥의 근위부가 이상적으로 늘어나 있었으며 대동맥과 상장간막 동맥 사이에서 압박을 받고 있는 양상을 보였다. 신문부근처의 근위부 신정맥과 대동맥 - 상장간막 동맥 사이부위의 신정맥에서 전후 직경과 최고 수축기 속도를 각각 3회씩 측정하였는데, 근위부의 신정맥의 평균 전후 직경은 0.81 cm으로 측정되었으며 (Fig. 1A), 대동맥과 상장간막 동맥사이에서는 평균 전후 직경이 0.12 cm정도로 측정되어 (Fig. 1B) 그 직경비는 6.8이었다. 도플러 검사에서 도플러 각을 30도에서 60도 범위내에서 측정한 근위부 신정맥의 평균 최고 수축기 속도는 약 19.8 cm/sec이었으며 (Fig. 1C) 대동맥 - 상장간막 동맥사이의 좌측신정맥의 평균 최고 수축기 속도는 약 105.5 cm/sec로 측정되어 (Fig. 1D) 최고 수축기 속도비는 5.3이었다. Nutcracker 현상을 의심하여 정맥 촬영술을 시행하였으며 대퇴정맥 (femoral vein)접근을 실패하여 내경정맥 (internal jugular vein)으로 접근하여 좌측 신정맥으로 카테터를 삽입하였으며 삽입과정에서 상장간막 동맥의 압박으로 인하여 카테터 (catheter)의 접근이 어려웠다. 조영제를 이용한 정맥 촬영술에서 신정맥의 압박 소견 및 굵은 측부 혈관 (collateral vein)이 관찰되었다 (Fig. 1E). 좌측 신정맥압과 하대 정맥압사이의 압력차이 (renocaval pressure gradient)는 약 7 mm Hg로 측정되어 Nutcraker 현상으로 진단하였다. 환아는 혈뇨로 인한 빈혈 증상이나 정계 정맥 증후군 (gonadal vein syndrome)으로 인한 복통 등의 증상이 없어서 추적 관찰중이다.

[1]관동대학교 의과대학 진단방사선과학교실
[2]관동대학교 의과대학 소아과학교실
이 논문은 2003년 6월 27일 접수하여 2004년 5월 24일에 채택되었음.

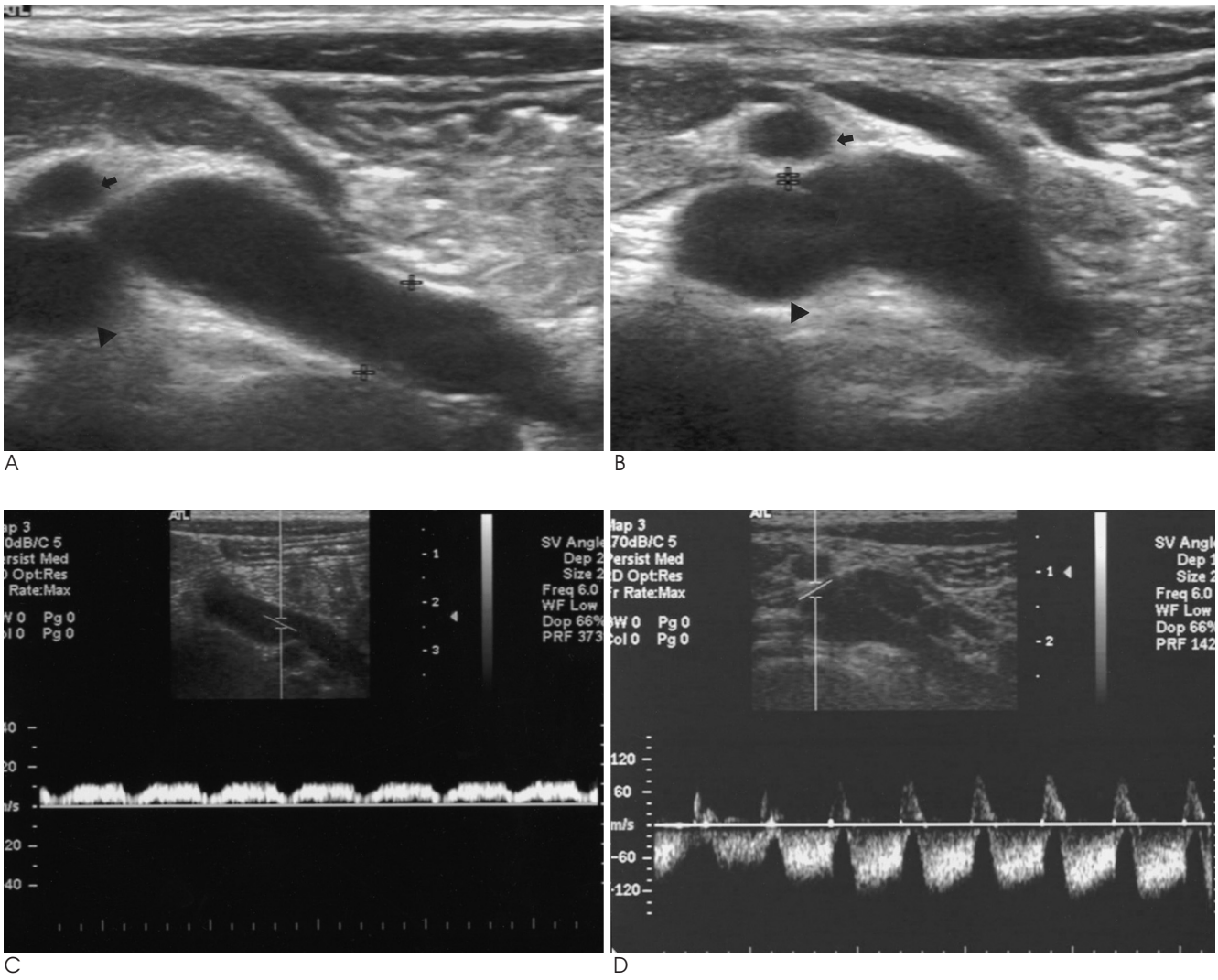

Fig. 1. A 12-year-old female with orthostatic protenuria.
Transverse scan shows distended proximal renal vein (A) and narrowed lumen between superior mesenteric artery(arrow) and aorta(arrowhead) (B) measuring as about 0.81cm and 0.12cm in mean AP diameter respectively.
Mean peak systolic velocity was measured as 19.8 cm/s at proximal renal vein (C) and 105.5 cm/s at aortomesenteric angle (D) on pulsed Doppler sonogram.
Left renal venography shows compression of renal vein at aortomesenteric angle, collateral vein (arrows). Renocaval pressure gradient was measured as 7 mmHg(E).

고 찰

기립성 단백뇨는 우연히 발견되는 무증상 단백뇨의 가장 흔한 원인이며 사춘기연령의 소아에서 약 5 - 6%, 청년기 연령에서 약 1 - 1.7%정도의 빈도로 발견되는 비교적 흔한 증상으로 비교적 좋은 예후를 보이는 양성 질환으로 알려져 있다(5). 그 원인에 대하여 신정맥의 압박에 의한 신울혈 또는 경한 사구체 병변등의 여러 가지 가설이 있지만 정확한 병인은 확립되어 있지 않다(3, 6). 최근의 문헌 보고에 의하면 편측성 혈뇨의 주된 원인으로 알려져 왔던 nutcracker 현상이 기립성 단백뇨를 일으키는 중요한 원인으로서 작용한다는 몇몇 연구가 발표되었다(2 - 4). nutcracker현상이란 좌측 신정맥이 대동맥과 상장간막 동맥 사이에서 압박을 받아 부분 폐쇄 현상을 유발하는 현상으로서 1972년 De Schepper에 의하여 처음으로 소개된 것으로 임상적으로 편측성 혈뇨, 좌측 요부동통, 복통 및 남자일 경우 정맥류(varicocele) 등을 일으키는 임상증후군이다(2, 3).

이를 진단하기 위한 방사선학적인 방법으로서 도플러 검사가 많이 행해지고 있으며 김 등의 보고에 의하면 신문부의 신정맥의 직경과 대동맥과 상장간막 동맥 사이의 신정맥의 전후 직경의 비가 5배 이상일 경우 민감도 69%, 특이도 89%로 nutcracker 증후군을 진단할 수 있으며 또한 각각의 부위에서의 최고 수축기 속도의 비가 5배 이상일 경우 민감도 80%와 특이도 94%로 진단이 가능하다고 보고하였다(7). 그러나 이러한 진단기준은 성인에 대한 연구결과이며 소아에서는 다른 진단 기준을 적용하는 것이 합리적이다고 하여 박 등은 좌측 신정맥 전후 직경비가 4.2이상, 최고 속도비가 4.0이상일 때 nutcracker 현상이 있다고 진단하는 것이 바람직하다고 대조군과의 비교연구를 통해 제시하였다(3). Takebayashi 등의 보고에서는 컬러 초음파 검사에서 측부혈관을 발견하는 것이 진단적 가치가 있는 소견이다 라고 발표하였다(8). 확진을 위해 시행하는 신정맥 조영술 소견으로는 다수의 정계정맥(gonadal vein), 상행 요부정맥(ascending lumbar vein), 부신정맥(adrenal vein), 캡슐 정맥(capsular vein)과 요도주변 정맥(periurethral vein) 등의 측부혈관을 관찰할 수 있고 성인의 경우 좌측 신정맥과 하대정맥사이의 압력차이가 3mmHg이상으로 측정되는 것을 볼 수 있으며 또한 직접적으로 좌측 신정맥이 대동맥과 상장간막 동맥사이에 압박받는 소견을 볼 수 있다(8). 최근에 이러한 진단 기준을 적응하여 기립성 단백뇨가 있는 환자들을 대상으로 검사한 결과 상당수에서 nutcracker 현상이 발견되었다는 보고가 있었다. 그 중 박 등의 보고에 의하면 최고 속도비를 3.98, 전후직경비 4.16을 진단 기준으로 하였을 경우 기립성 단백뇨환자의 48.9%에서 nutcracker 현상이 있는 것으로 밝혀져 이러한 현상이 전혀 발견되지 않은 대조군과 유의한 차이를 보여 nutcracker 현상이 기립성 단백뇨의 중요한 원인의 하나임을 제시하였다(3). 조 등의 보고에서도 기립성 단백뇨 환자의 도플러 초음파 검사에서 최고 속도비를 5.0으로 했을 경우 56.4%에서 nutcracker 현상이 발견되어 nutcracker 현상이 기립성 단백뇨의 중요한 원인 중의 하나임을 보고하였으며 신장 도플러김사가 nutcracker 현상을 진단하는 중요한 진단 방법임을 제시하였다(2). 그러나 소아의 경우 대동맥 - 상장간막 동맥사이 신정맥의 최고 수축기 속도를 측정하는데 있어서 어려움이 있는데, 이는 성인에 비해 대동맥 - 상장간막 동맥사이의 샘플링 영역(sampling area)이 작고 도플러각이 크기 때문이다. 그러나 성인에 비해 복벽이 얇고 복강내 지방이 적어서 고주파수의 선형 탐촉자를 이용해 보다 정확하게 좁아진 대동맥 - 상장간막 동맥 구역의 신정맥을 샘플링할수 있는 장점이 있다.

Nutcracker 증후군으로 일단 진단이 되면 이는 양성 질환으로 대부분의 경우 특별한 치료를 요하지 않고 고식적인 치료방법을 선택하게 되는데 예를 들어 좌신정맥의 압박은 기립자세나 앙와위 자세에서 소장과 장간막으로 인해 더욱 심해지므로 복와위 자세로 수면을 취하게 하는 것도 증상을 완화시키는 방법이 될 수 있다. 그러나 심한 빈혈을 초래할 정도로 혈뇨가 심하거나 정계정맥 증후군(gonadal vein syndrome)으로 요통과 복통이 심할 경우 좌측 신정맥의 재문합, 측부혈관의 제거 혹은 결찰 등과 같은 외과적 처치가 필요할 수 있다(9).

결론적으로 기립성 단백뇨를 호소하는 소아 환자에서 초음파 검사를 시행할 때 신장 실질의 변화 뿐만 아니라 좌측 신정맥에 대한 도플러 검사를 반드시 함께 시행함으로써 기립성 단백뇨의 원인으로써 nutcracker 현상의 존재여부를 평가해야 할 것으로 생각한다.

참 고 문 헌

1. 이종국. 이동환, 양세원 등. 서울지역내 초, 중, 고 학생들에 실시된 8년동안의 집단뇨검사 결과 분석. *소아과* 1997;40:1347-1359
2. Cho BS, Choi YM, Kang HH. Park SJ, Lim JW, Yoon TY. Diagnosis of nut-cracker phenomenon using renal Doppler ultrasound in orthostatic proteinuria. *Nephrol Dial Transplant* 2001;16:1620-1625
3. Park SJ, Lim JW, Cho BS, Yoon TY, Oh JH. Nutcracker syndrome in children with orthostatic proteinuria: diagnosis on the basis of Doppler sonography. *J Ultrasound Med* 2002;21:39-45
4. Ekim M, Bakkaloglu SA, Tumer N, Sanlidilek, Salih M. Orthostatic proteinuria as a result of venous compression (nutcraker phenomenon)- a hypothesis testable with modern imaging techniques. *Nephrol Dial Transplant* 1999;14:826-827
5. Rytand DA, Spreiter S. Prognosis in postural (orthostatic) proteinuria. *N Engl J Med* 1981;305:618-621
6. Buchanec J, Javorka K. Contribution of the etiopathogenesis of orthostatic proteinuria in children. *Int Urol Nephrol* 1997;9:163-168
7. Kim SH, Cho SW, Kim HD, Chung JW, Park JH, Han MC. Nutcracker syndrome: Diagnosis with Doppler US. *Radiology* 1996;198:93-97
8. Takebayashi S, Ueki T, Ikeda N, Fujikawa A. Diagnosis of the nutcracker syndrome with color Doppler sonography: correlation with flow patterns on retrograde left renal venography. *AJR Am J Roentgenol* 1999;172:39-43
9. Stewart BH, Reiman G. Left renal veinous hypertension "nutcracker" syndrome. Managed by direct renovascular reimplantation. *Urology* 1982;20:365-369

J Korean Radiol Soc 2004;51:99 - 102

Orthostatic Proteinuria with Nutcracker Phenomenon: Case Report[1]

Noh Hyuck Park, M.D., Soon Young Song, M.D., En Ja Lee, M.D.,
Mi Sung Kim, M.D., Byung Gil Kim, M.D.[2]

[1]*Department of Diagnostic Radiology, Kwandong University, College of Medicine*
[2]*Department of Pediatrics, Kwandong University, College of Medicine*

Orthostatic proteinuria has been recognized as a benign condition with a good prognosis and has not been associated with any underlying glomerular disease. The pathogenesis of orthostatic proteinuria is unclear. Recently, a few foreign reports suggested that the nutcracker phenomenon, which is known as a cause of asymptomatic hematuria, may also be a major cause of orthostatic proteinuria. We report a case of a 12-year-old female patient presenting only with orthostatic proteinuria, who was diagnosed as having nutcracker phenomenon by Doppler study and venography.

Index words : Children, genitourinary system
Kidney, diseases
Renal veins
Renal veins, US

Address reprint requests to : Noh Hyuck Park, M.D., Department of Diagnostic Radiology, Kwandong University College of Medicine
Myongji Hospital, 697-24 Hwajung-dong, Koyang, Kyunggi-do 412-279, Korea.
Tel. 82-31-810-7164 Fax. 82-31-962-4902