

제대 염전을 동반하며 양측 태아 모두 생존 출생한 일양막성 쌍태임신 1예

을지대학병원 산부인과학교실

송영래·김기환·전상훈·심삼용·강경화·이병관·노정훈
오관영·양윤석·황인택·박준숙

One case of monoamniotic twin pregnancy with cord entanglement and both fetus survival

Young Rae Song, M.D., Ki Hwan Kim, M.D., Sang Hun Jun, M.D., Sam Yong Sim, M.D.,
Kyung Hwa Kang, M.D., Byung Kwan Lee, M.D., Jeong Hoon Rho, M.D., Kwan Young Oh, M.D.,
Yoon Seok Yang, M.D., In Taek Hwang, M.D., Joon Suk Park, M.D.

Department of Obstetrics & Gynecology, Eulji University Hospital, Daejeon, Korea.

Approximately 1 percent of monozygotic twins are monoamniotic, and the perinatal mortality is 50-60 percent. The most common cause of death is cord entanglement, and is also related to preterm delivery, twin-to-twin transfusion syndrome, intrauterine growth restriction, congenital anomalies. Once diagnosed, management of the monoamniotic twins is problematic due to the unpredictability of fetal death and the optimal timing and mode of delivery are controversial. Recently, we have experienced one case of monoamniotic twin with cord entanglement and both fetus survival by cesarean section at 34⁺ weeks, and so we present it with brief review of literature.

Key words: Monoamniotic twin, Cord entanglement

서 론

같은 양막강 내에 양측 태아가 같이 존재하는 일양막성 쌍태 임신은 일란성 쌍태 임신의 약 1%를 차지하는 매우 드문 임신 형태로 주산기 사망률이 50-60%에 이르는 고위험 임신이다.

태아 사망의 주요 원인으로는 제대 염전이 가장 흔한 원인이고, 조산, 자궁내 발육 부전, 태아간 수혈 증후군, 높은 기형아 빈도 등이다.

본 저자들은 제대 염전을 동반하면서 양측 태아 모두 제왕 절개술로 생존 출생한 1예를 경험하였기에 문헌

고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 강○근, 28세, 임신 28⁺6주

임신력 : 0-0-0-0

가족력 및 과거력 : 특이 사항 없음.

월경력 : 월경주기는 30일로 규칙적이었고, 지속일수는 5-6일, 양은 중등도였다.

현병력 : 최종 월경일은 2004년 9월 21일, 분만 예정일은 2005년 6월 27일로 자연주기 임신이었으며, 임신 초기에 개인 산부인과에서 일양막성 쌍태임신으로 진단받고 산전 진찰을 받던 중 임신 28주 6일경에 시작된 하복

부 통증있어 본원으로 전원되었다.

입원시 소견 : 환자의 영양 상태는 양호하였으며, 신장 163 cm, 체중 61 kg, 혈압 120/90 mmHg, 맥박 80회/min, 체온 36.7℃이었다. 양측 태아 심음은 각각 160회/min, 157회/min으로 규칙적이었다. 내원당시 본원에서 시행한 복부 초음파 검사상 일양막성 쌍태임신이 확인되었고 양측 태아 심박동은 잘 관찰되었으며 심장기형이나 다른 기형은 발견되지 않았다. 두 태아의 크기는 모두 정상범위였고 양측 태아사이의 성장 불일치 소견은 관찰되지 않았다. 두 태아 모두 두정위였으며 아두는 골반강 내로 진입하지 않은 상태였고, 내진 상 자궁 경관은 1 cm 개대, 50% 소실 소견 보였다. 비수축 검사상 반응성을 보였고, 자궁 수축은 물결 모양을 보였다. 질 출혈 및 질 분비물은 관찰되지 않았다. 환자는 조기 진통 소견보여 안정 및 약물 치료를 위해 입원하였고 약물 치료는 ritodrine hydrochloride를 사용하였다. Ritodrine hydrochloride를 시작하고 40 µgm/min 용량에서 하복부 통증이 호전되었고 자궁 수축도 관찰되지 않았다. 그러나 Ritodrine hydrochloride를 중단하면 규칙적인 자궁 수축이 나타나서 수술 전날까지 계속 수액에 혼합하여 투여하였다. 입원 후에는 지속적으로 전자 태아 감시장치를 사용하여 비수축 검사 및 자궁 수축 검사를 시행하였다. 환자는 매주 칼라 도플러 검사를 시행하였고, 이완기 함요 및 역행의 이완기 속도같은 비정상적 소견은 보이지 않았으며 제대 염전은 명확히 보이지 않았다. 본원에서 환자와 보호자에게 충분히 설명후 환자에게 34주 이후에 제왕절개술을 권유하였고, 태아 폐성숙 촉진위해 임신 32주와 33주에 각각 Dexamethasone 5 mg을 12시간 간격으로 총 4회 투여하였다. 환자와 보호자 동의하에 임신 34주 4일에 제왕절개술을 시행하기로 하였다.

검사 소견 : 혈액형은 B형 (Rh 양성), 혈색소 11.9 mg/dL, 적혈구 용적 34.5%, 백혈구 수 6,100/mm³, 소변 검사상 뇨단백 및 뇨 당은 음성이고 간기능 검사상 SGOT/SGPT는 18/12로 정상이었다. 혈청 매독 반응 및 간염 항원 검사는 음성이었다. 혈액 응고 검사와 단순 흉부 방사선 촬영은 정상이었으며, 심전도 검사도 정상이었다.

개인 산부인과에서 시행한 삼중검사 및 임신성 당뇨 선별검사는 정상이었다.

출산 및 신생아 소견 : 환자는 임신 34주 4일에 전신 마취하에 제왕 절개술을 시행하였다. 첫 번째 남아는 체중 1,880 gm, 두 번째 남아는 체중 1,900 gm 이었고, 1분, 5분 Apgar score는 모두 5, 7점이었으며 육안적 기형은 보이지 않았다. 제대 동맥혈의 ABGA는 첫 번째 남아에서 pH 7.261, pCO₂ 56.8 mmHg, pO₂ 44.5 mmHg, HCO₃ 25.0 mEq이었고, 두 번째 남아에서 pH 7.263, pCO₂ 49.2 mmHg, pO₂ 41.9 mmHg, HCO₃ 21.7 mEq이었다. 신생아들은 제왕 절개술 시행 후 바로 신생아 중환자실로 이송되었고 기관지 삽관과 인공 호흡기 부착없이 집중 치료를 받았다. 입원 기간 중 시행 한 뇌 초음파 검사 및 다른 검사 상 특이 소견보이지 않았고, 입원 20일째 각각 2,300 gm, 2,350 gm의 체중으로 퇴원하였다.

태반 및 태아제대의 육안적 소견 : 태반의 크기는 20×17×2 cm이고 무게는 610 gm이었다. 첫 번째 남아의 제대길이는 75 cm이고 두 번째 남아의 제대 길이는 63 cm이었다. 두 개의 제대는 모두 태반의 중앙에 부착되어 있었으며 다른 기형은 보이지 않았으나 서로 심하게 얽혀 있었고 매듭을 두 번 형성하고 있었다 (Fig. 1, 2).



Fig. 1. Placenta and two umbilical cords showing severe entanglement.



Fig. 2. The magnified photograph of two umbilical cords with severe entanglement..

수술 후 경과 : 수술 후 환자상태는 양호하였으며, 별다른 특이 사항없이 수술 후 제5일째 퇴원하였다.

고 찰

일란성 쌍태임신은 전체 쌍태임신의 약 20%를 차지하고 출생 1,000명 당 4명의 빈도로 발생하며, 그 중 75%는 단일 용모막성이다. 단일 용모막성 쌍태임신중 대부분은 이양막성이고 일양막성 쌍태임신은 약 1%에 해당한다.¹

Corner의 가설에 의하면 일란성 쌍태임신은 수정된 난자의 발육 단계에 따라 3단계로 나눌 수 있다고 하였는데, 첫째로 수정된 후 72시간 이내에 분할이 되면 용모가 형성되기 전이기 때문에 이양막 이용모성 쌍태임신이 되고, 둘째로 수정된 후 4일에서 8일 사이에 분할이 일어나면 용모는 형성되고 양막은 형성되기 전이기 때문에 이양막 이용모막성 쌍태임신이 되며, 셋째로 수정 후 8일 이후에 분할이 되면 용모와 양막이 이미 형성된 후이기 때문에 일양막 이용모막성 쌍태임신이 된다고 하였다.²

일양막성 쌍태임신은 제대 염전, 선천성 기형, 태아 간 수혈 증후군, 자궁내 태아 발육 부전, 조기 분만, 자궁내 태아사망 등과 높은 관련이 있다. 일양막성 쌍태임신의 주산기 사망률은 Lumme 등에 의해 28-47%로 보고되었고,³ 이후 Allen 등에 의해 10-12.5%로 보고되고 있다.⁴ 이러한 생존율의 증가는 일양막성 쌍태임신을 조기에 진단하고 스테로이드의 사용 및 제대의 염전을 철저히 관찰하려는 노력의 결과로 볼 수 있겠다.¹⁸ 이 중 제대 염전은 제대 혈류에 장애를 주게되어 태아 가사 및 태아 사망의 가장 흔한 원인이 된다.^{5,6} 국내에서 두 제대가 상호 염전을 일으킨 일양막성 쌍태 임신의 경우는 1982년 원대근 등⁷ 이후로 드물게 보고되고 있다. 제대 합병증은 주로 임신 첫 이삼분기에 발생하는데 이는 한 양막 낭 내에서 양측 태아의 움직임이 자유롭기 때문이다. 양수량과 제대 합병증과의 관계에서 양수량이 많으면 태아의 활발한 움직임에 의해 제대 염전과 진 결절 등이 잘 형성될 수 있다. 그러나 본 증례에서는 양수와 다증은 없었다.

일양막성 쌍태임신의 진단은 초음파로 진단 가능한데 양막강을 나누는 양막이 관찰되지 않으며 하나의 태반과 동일한 성의 태아, 임신 20주와 26주 사이에 충분한 양수량 내에서 양측 태아의 움직임에 제한이 없어야 한다. 그밖에 칼라 도플러를 사용하여 제대 염전을 진단할 수 있다. 그러나 이러한 초음파 기술의 향상에도 불구하고 초음파 검사만으로 일양막성 쌍태임신을 확진할 수는 없다. 일양막성 쌍태임신의 진단에 침습적이고 확진적인 방법으로 Tabsh 등이 인디고 카민 염색을 소량의 공기와 같이 섞어 양막낭 내 초음파 가이드 하에 주입하는 방법을 시행하였고, Strohehn과 Dattele은 조영제를 주입한 후 컴퓨터 단층촬영과 양수강 조영술을 시행하여 태아의 복강내에 조영제의 존재 유무를 확인하는 방법 등을 보고하였으나 현재는 잘 사용되지 않는다.

일단 진단이 되어지면 일양막성 쌍태임신 산전 관리는 제대 염전과 이의 적절한 감시수단의 부재로 인한 예측할 수 없는 태아사망을 예방하는 것이 가장 중요하며 또한 매우 어려운 문제이다. 철저한 태아의 심음청취를 통해 태아 심음의 변화를 관찰하여야 하며 제대 염전

에 의한 태아 사망은 갑자기 발생하므로 비수축 검사를 통해 반복적인 제대 압박을 의심할 수 있는 변이성 심박저하나 태아 서맥 등이 나타날 때는 지속적인 태아감시나 분만을 통해 태아 사망을 예방할 수 있다.⁸ Aisenbrey 등에 의하면 일양막성 쌍태임신 환자에서 입원관찰은 고위험군 즉, 양측태아 사이의 성장 불일치가 있거나, 태아 심음 추적 검사상 변이성 심박저하가 보이거나, 제대 도플러 초음파 검사상 비정상 소견이 보일 경우에만 추천된다고 하였으며,⁹ 일반적인 입원관찰은 논란의 여지가 있다. 일양막성 쌍태임신에서 정기적인 초음파 검사는 태아의 생물학적 측정, 크기 불일치, 양수양을 평가하기 위해 일반적으로 격주로 시행된다. 칼라플로우 도플러의 제대 지도 작성 역시 정기적인 초음파검사시 시행되어야 하며 필요시 매주 시행해야 한다. 칼라 플로우 도플러 검사상 이완기 함요 (diastolic notch), 이완기 속도의 부재 또는 역행의 이완기 속도 (reversed diastolic velocity)같은 비정상적인 소견이 관찰될 수 있다. 특히 함요의 존재는 제대 염전 부분의 제대 혈관 수축에 의한 이차적인 태아-태반 순환의 혈액역학적 변화를 의미한다.¹⁰⁻¹³ 본 증례에서도 입원시부터 매주 초음파 검사시 칼라 플로우 도플러 초음파를 시행하여 제대 염전의 여부를 지속적으로 관찰하였으나 비정상적인 소견은 관찰되지 않았다.

분만 시기에 대해서는 아직까지 명확히 확립되어 있지 않다. Kassam 등은 일양막성 쌍태임신에서 제대 사고를 예방하기 위해 태아의 폐성숙이 확인된 후 바로 분만을 시켜야 한다고 주장하였고,¹⁴ Rodis 등은 임신 32주 이후에 제대와 관련된 태아 사망이 증가하고 이 위험이 32주의 조산과 관련된 신생아 유병률이나 사망률의 위험보다 더 크다고 판단하여 임신 32주경에 조기 분만을 시도해야 한다고 주장하였다.⁸ 또한 예측할 수 없는 조산의 고위험 때문에 생존 가능한 주수부터 스테로이드의 매주 투여를 주장하였다. 그러나 스테로이드의 반복 투여로는 사망률의 증가, 출생 체중의 감소와 관련된 결과를 향상시키지 못하였고, 지속적인 부신억제와 관련된 문제를 야기하였다.¹⁵ 또한 이상적인 스테로이드의 투여 시기는 분만 1주일 이내이므로 신중한 스테로이드 투여

를 주장하였다. 다른 보고에 의하면 임신 30-32주 이후에는 단일 양막성 쌍태임신에서 자궁내 태아사망이 거의 발생하지 않는다고 하였다. 즉, 30주 이후에는 조산으로 인한 사망률이 제대와 관련된 합병증에 의한 사망률보다 더 크다고 결론짓고 조기에 분만을 시도할 필요가 없다고 주장하였다.¹⁶⁻¹⁸ 본 증례에서는 여러 문헌의 보고를 참고하여 환자 및 보호자와 충분한 상담 후 34주 이후에 분만을 결정하였으며, 조기 진통으로 인한 조산의 위험과 34주 이후에 제왕절개술을 고려했기 때문에 32주와 33주에 스테로이드인 Dexamethasone을 투여하였다. 2차례의 스테로이드 투여로 인한 합병증은 산모나 태아에게서 발생하지 않았다.

또한 분만 방법에 대해서도 확립되어 있지 않다. Tessen 등은 분만 진통이나 질식 분만술이 태아 사망의 위험 증가와 관련이 없다고 하였고,¹⁶ Dubecq 등은 정상 도플러 초음파 소견과 양측 태아 모두 두정위인 경우 질식 분만이 정당하다고 하였으나,¹⁹ 다른 학자들은 태아 맞물림과 제대 염전의 위험이 있으므로 생존 가능한 태아에 대해서는 제왕 절개술을 시행하는 것이 바람직하다고 하였다.^{20,21} 본 증례에서는 양측 태아가 모두 두정위였으나 환자 및 보호자와 상담 후 분만 방식으로 제왕 절개술을 선택하였다.

일양막성 쌍태임신에서 적절한 산전 관리, 분만 시기와 분만 방법에 대해서 아직은 확실히 정립된 의견이 없는 상태이므로 더 많은 전향적인 연구가 필요하리라 생각된다.

저자들은 본원 산부인과에서 제대 염전을 동반하면서 양측 태아 모두 생존 출생한 일양막성 쌍태임신 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Strohehn K, Dattel BJ. Pitfalls in the diagnosis of nonconjoined monoamniotic twins. J Perinatol 1995; 15: 484-93.
2. Corner G.W. The observed embryology of human single-ovum twins and other multiple birth. Am J Obstet Gynecol 1955; 70: 933-51.
3. Lumme RH, Saarikoski SV. Monoamniotic twin pregnancy. Acta Genet Med Gemellol 1986; 35: 99-105.

4. Allen VM, Windrin R, Barrett J, Ohlsson A. Management of monoamniotic twin pregnancies; a case series and systemic review of the literature. *Br J Obstet Gynecol* 2001; 108: 931-6.
5. Benirschke K. Intrauterine death of a twin: Mechanism, implications for surviving twin, and placental pathology. *Sem Diag Pathol* 1993; 10: 222-31.
6. Dorum A, Nesheim BI. Monochorionic monoamniotic twins-the most precarious of twin pregnancies. *Acta obstet Gynecol Scand* 1991; 70: 381-3.
7. 원대근, 서상준, 김홍택. 두 제대가 상호 염전을 일으킨 일양막성 쌍태 임신. *대한산부회지* 1982; 25: 239-43.
8. Rodis JF, Vintzileos AM, Campbell WA, Deaton JL, Fumia F, Nochimson DJ. Antenatal diagnosis and management of monoamniotic twins. *Am J Obstet Gynecol* 1987; 157: 1255-7.
9. Aisenbery GA, Catanzarite VA, Hurley AJ, Spiegel JH, Schrimmer DB, Mendoza A. Monochorionic and pseudomonoamniotic twins. Sonographic diagnosis, detection of cord entanglement and obstetric management. *Obstet Gynecol* 1995; 86: 218-22.
10. Overton TG, Denbow ML, Duncan KR, Fisk NM. First trimester cord entanglement in monoamniotic twins. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1993; 168: 601-4.
11. Belfort MA, Moise KJ, Kirshon B, Saade G. The use of colour flow Doppler ultrasonography to diagnose umbilical cord entanglement in monoamniotic twin gestations. *Am J Obstet Gynecol* 1993; 168: 601-4.
12. Pedersen MH, Larsen T. Three-dimensional ultrasonography of monoamniotic twins. *Ugeskr Laeger* 2001; 163: 618-9.
13. Abuhamad AX, Mari G, Copel JA, Cantwell CJ, Evans AT. Umbilical artery flow velocity waveforms in monoamniotic twins with cord entanglement. *Obstet Gynecol* 1995; 86: 674-7.
14. Kassam SH, Thompkins MG. Monoamniotic twin pregnancy and modern obstetrics. *Diagn Gynecol Obstet* 1980; 2: 213-20.
15. Banks BA, Cnaan A, Morgan MA, Parer JT, Merrill JD, Ballard PL, et al. Multiple courses of antenatal corticosteroids and outcome of premature neonates. North American Thyrotropin-Releasing Hormone Study Group. *Am J Obstet Gynecol* 1999; 181: 709-17.
16. Tessen JA, Zlatnik JF. Monoamniotic twins: a retrospective controlled study. *Obstet Gynecol* 1991; 77: 832-4.
17. Carr SR, Aronson MP, Couston DR. Survival rates of monoamniotic twins do not decrease after 30 weeks of gestation. *Am J Obstet Gynecol* 1990; 163: 719-22.
18. Demaria F, Goffinet F, Kayem G, Tsatsaris V, Hessabi M, Cabrol D. Monoamniotic twin pregnancies: antenatal management and perinatal results of 19 consecutive cases. *Br J Obstet Gynecol* 2005; 111: 22-6.
19. Dubecq F, Dufour PH, Vinatier D, Thibault D, Lefebvre C, Tordjeman N, et al. Monoamniotic twin pregnancies. Review of the literature, and a case report with vaginal delivery. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1996; 66: 183-6.
20. Annan B, Hutson RC. Double survival despite cord entwinment in monoamniotic twins. Case report. *Br J Obstet Gynecol* 1990; 97: 950-1.
21. Pijnenborg JAM, Oei G. The monoamniotic twin: a riskful event. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1999; 86: 51-3.

「국문초록」

일양막성 쌍태임신은 일란성 쌍태임신의 약 1%를 차지하며, 주산기 사망률이 50-60%에 이르는 고위험 임신이다. 가장 흔한 사망 원인은 제대 염전이고, 조산, 태아 간 수혈 증후군, 자궁내 발육 부전, 높은 기형아 빈도 등도 포함된다. 일양막성 쌍태 임신의 산전 관리는 예측할 수 없는 태아 사망 때문에 어려운 문제이고, 분만 시기와 분만 방법의 결정에도 많은 어려움이 있다.

본 저자들은 제대 염전을 동반하면서 임신 34주 4일에 제왕 절개술로 양측 태아 모두 생존 출생한 일양막성 쌍태 임신을 간단한 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어 : 일양막성 쌍태임신, 제대 염전
