

산전 초음파와 태아자기공명영상을 이용해 진단한 태아 수자궁질증 1예

울산대학교 의과대학 서울아산병원 산부인과학교실, 방사선과학교실¹

박상민·원혜성·김선관·김정곤¹·심재윤·이필량·김 암

Fetal Hydrometrocolpos: Prenatal Imaging with Ultrasound and MRI

Sang-Min Park, M.D., Hye-Sung Won, M.D., Sun-Kwon Kim, M.D., Jeong Kon Kim, M.D.¹,
Jae-Yoon Shim, M.D., Pyl Ryang Lee, M.D., Ahm Kim, M.D.

*Departments of Obstetrics and Gynecology and Radiology¹, University of Ulsan College of Medicine,
Asan Medical Center, Seoul, Korea*

Hydrometrocolpos is a congenital malformation characterized by dilatation of the vagina and uterus resulting from genital tract obstruction. Accurate diagnosis and treatment are necessary for prevention of its complications such as the respiratory distress and the urinary obstruction that can be fatal to neonate. There have been some reports of antenatal diagnosis of hydrometrocolpos with ultrasonography. However, to our knowledge, it has never been reported a case of hydrometrocolpos diagnosed with fetal MRI. We experienced a case of fetal hydrometrocolpos due to imperforate hymen diagnosed with prenatal ultrasound and fetal MRI. We present this case with brief review of literature.

Key words: Hydrometrocolpos, Congenital vaginal obstruction, Prenatal diagnosis, Fetal MRI

서 론

수자궁질증(hydrometrocolpos)은 태아의 비뇨생식기계의 폐색으로 인해 질과 자궁에 점액성의 분비물이 축적되어 질과 자궁이 확장되는 드문 선천성 기형으로, 이러한 폐색은 처녀막 막힘증(imperforate hymen), 횡질증격(transverse vaginal septum), 질 폐쇄증(vaginal atresia) 등에 의해 발생할 수 있다.¹ 이러한 해부학적 이상은 사춘기 이후에 질혈증(hematocolpos)으로 발견되는 경우가 대부분이나, 드물게 모체의 에스트로겐이 태아의 생식기관을 자극하여 분비물이 자궁과 질 내에 축적되는 경우, 선천적인 수자궁질증으로 진단된다. 수자궁질증은 신생아기에 폐쇄요로병증, 장 폐색, 복부 팽만으로 인한 호

흡곤란 등의 문제를 일으킬 수 있는 것으로 알려져 있으며, 특히 다른 기형이나 증후군과 동반될 가능성이 있으므로 전체적이고 정확한 태아 및 신생아의 해부학적 평가가 요구되는 질병이다.²⁻⁴ 초음파를 이용하여 수자궁질증을 진단한 여러 보고가 있었으나, 태아 자기공명영상(fetal magnetic resonance imaging)을 진단에 이용한 예는 보고되지 않았다. 이에, 저자들은 산전 초음파와 태아 자기공명영상을 통해 진단한 수자궁질증 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 홍○연, 25세

주 소 : 임신 32주 4일에 개인병원에서 시행한 산전 초음파 상 직경 2.6 cm의 골반 내 낭종 소견 보여 본인

접수일 : 2005. 9. 28.
주관책임자 : 원혜성

으로 전원되었다.

산과력 : - 0 -

월경력 : 최종 월경일은 2003년 3월 26일이었고, 분만 예정일은 2004년 1월 2일이었다. 기간은 4일이었고, 주기는 28일로 규칙적이었다.

과거력 : 특이 사항 없음.

가족력 : 특이 사항 없음.

산전 초음파 소견 : 2003년 11월 11일, 임신 32주 4일에 시행한 산전 초음파 검사상 여아로 태위는 둔위였으며 양두정골 직경은 8.1 cm (32주 6일), 머리 둘레는 29.4 cm (32주 4일), 복부 둘레는 28.1 cm (32주 1일), 대퇴골 길이는 6.3 cm (32주 5일)로 측정되었으며, 태아 체중은 2009 g (32주 4일)으로 임신 주수에 맞는 소견을 보였으나, 양수 지수는 200으로 증가되어 있었다. 골반 내의 방광 뒤쪽으로 6.5×2.2 cm 크기의 무중격의 저에코성 낭종의 소견을 보였으며, 다른 장기의 이상 소견은 보이지 않았다(Fig. 1A). 종괴가 회음부로 융기되는 모습을 초음파로 관찰할 수 있었으므로 수자궁질증을 먼저 의심하게 되었고, 대장 폐색 또는 난소 낭종의 가능성도 고려하였다(Fig. 1B).



Fig. 1A. Transabdominal ultrasonography of fetal pelvis shows well defined, homogenous round echogenic mass posterior to the bladder.

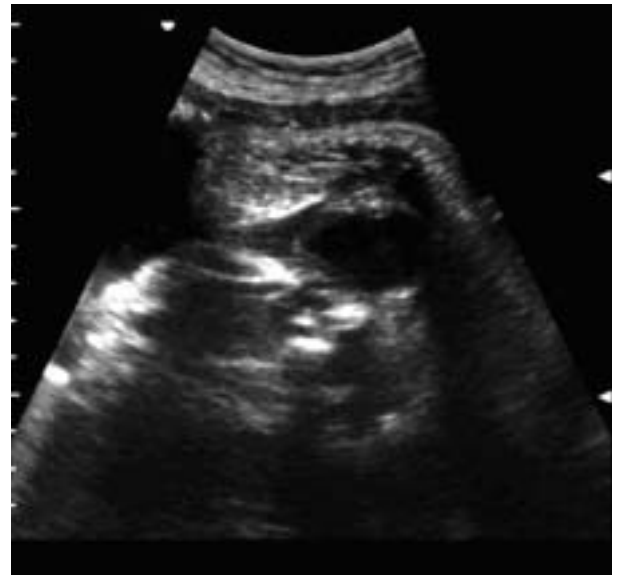


Fig. 1B. Transverse sonogram of fetal perineum. Notice the hypoechoic cystic space spreading the labia majora.

태아자기공명영상 검사 소견 : 2003년 11월 13일, 임신 32주 6일에 태아 자기공명영상(fetal MRI) 검사를 시행하였다. 검사 소견상 골반 내에 4.5×2.6 cm의 낭성 구조물이 관찰되었으며, 구조물의 꼬리 부분(caudal end)에서 점점 가늘어지는 소견을 보였다(Fig. 2A, B). 구조물 전방과 후방으로 각각 방광과 직장으로 생각되는 구조물이 관찰되어, 심한 수자궁질증을 동반한 처녀막 막힘증으로 진단하고 경과를 관찰하였다.

이학적 소견 : 입원 당시 임신 38주 4일로 혈압은 121/75 mmHg, 맥박은 102회였으며, 체온은 36.7℃, 호흡수는 22회였다. 전신 상태는 양호하였으며, 결막의 빈혈소견은 보이지 않았고 청진상 호흡음이나 심음은 정상이었다. 복부는 팽만되어 있었으며, 부드러웠고 자궁저부의 높이는 40 cm이었다. 태아는 둔위였으며, 태아 심음은 148회로 정상이었다. 내진 소견상 자궁 경부의 개대나 속화는 관찰되지 않았다.

검사 소견 : 입원 당시 혈색소는 12.2 g/dL, 적혈구 용적은 35.4%, 백혈구는 10,900/mm³, 혈소판은 131,000/mm³이었으며, 간기능, 신기능, 전해질, 응고인자, 요검사 소견은 정상이었다. B형 간염, 매독검사도 음성이었으며, 심전도와 흉부 X선 촬영 소견도 정상이었다.

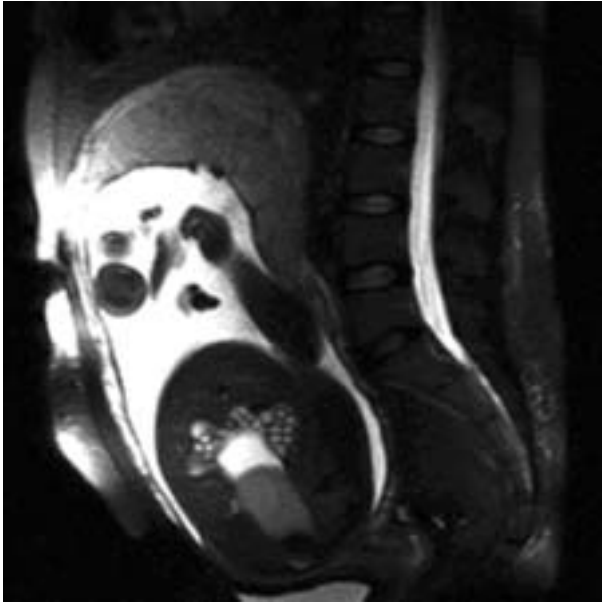


Fig. 2A. T2-weighted coronal MR image shows a cystic mass inferior to the bladder, which shows tapering (arrowhead) to the caudal direction, suggesting cervical canal.

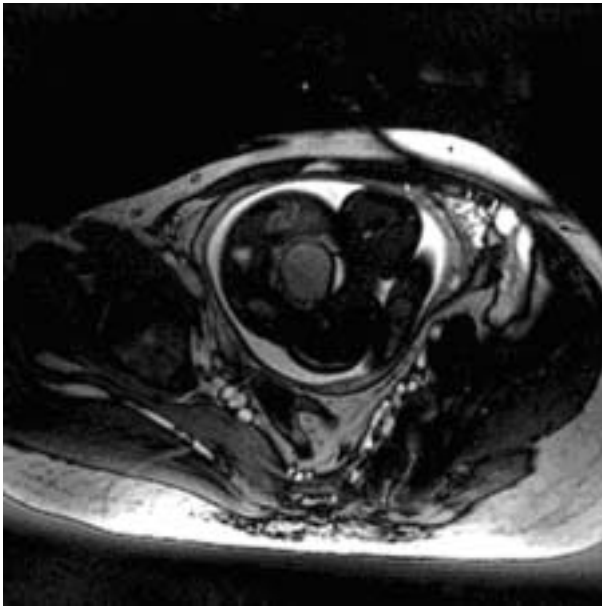


Fig. 2B. T2-weighted transverse MR image shows a well defined cystic mass (arrow) anterior to the sacrum (curved arrow) and posterior to the bladder (arrowheads), suggesting that it is dilated uterus.

입원 경과 : 임신 38주 5일, 둔위 임신으로 제왕절개술을 시행하였고, 산모는 수술 후 4일째 정상적으로 퇴원하였다.

신생아 소견 : 수술 당시 태아는 여아였고, 체중은 3650 g으로 측정되었으며, 신장은 51 cm, 머리 둘레는 35.5 cm으로 모두 75-90백분위수 범위에 있었다. 1분, 5분 Apgar점수는 각각 8점, 9점이었다. 활력징후는 정상 범위였으며, 진찰상 호흡음과 심음은 정상이었으며 약간의 복부 팽만 소견을 보였고, 장음은 정상으로 청진되었다. 근골격계나 다른 부위에 육안적 기형 소견은 보이지 않았으나, 질 입구를 덮고 있는 중격이 관찰되었으며, 내부는 점액성의 물질로 차 있어 태아의 울음 등에 의해 복압이 증가할 때 융기되는 소견을 보였으며 크기는 1.0 × 1.0 cm이었다(Fig. 3). 항문과 요도는 정상적으로 개통되어 있어 소변과 태변 배출을 확인할 수 있었다.



Fig. 3. Gross appearance shows bulging hymen filled with mucous fluid.

신생아 경과 : 생후 1일째 태아의 활력징후는 정상이었으며, 단순 복부 촬영상 위와 소장의 가스가 정상적으로 관찰되어, 식이를 진행하였다. 생후 2일째, 처녀막 중격 절개술을 시행하였다(Fig. 4). 18 gauge의 바늘로 낭종을

천공하여 40 cc 가량의 유백색의 체액을 뽑아내었다. 처녀막 증격에 십자 절개를 가한 후, Kelly로 내강을 확장시킨 후, 협착을 방지하기 위하여 주머니 형성술(marsupialization)을 시행하였다. 체액 검사상 pH는 7.4, 단백은 1.1 g/dL, 포도당은 1267 mg/dL로 측정되었고, 악성 세포는 관찰되지 않았으며, 상피세포가 다수 관찰되었다.

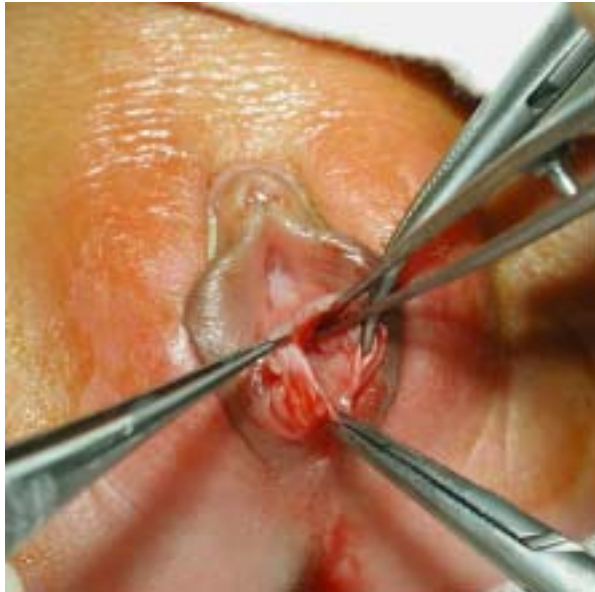


Fig. 4. Cruciate incision and marsupialization of hymen was performed.

생후 4일째 시행한 복부 초음파 검사상 질과 자궁의 확장이 호전된 소견을 보였으며, 황달 증세가 보여 시행한 총 빌리루빈 수치가 11.0으로 측정되어 이틀간 광선 치료를 시행한 후 퇴원하였다.

생후 6개월째 외래 추적결과, 태아의 발육상태는 정상 이었고, 수술 부위도 정상적으로 치유되었으며, 복부 초음파 검사상 질과 자궁은 정상적으로 관찰되었다.

고 찰

수자궁질증은 드문 선천성 기형으로, 다양한 원인에 의한 생식기의 폐색과 분비물의 축적으로 인해 질과 자

궁이 늘어나는 질환이다. 1856년 Godefoy에 의해 처음 보고된 이후, 1961년 Spencer는 당시까지 총 60건 가량의 보고가 있었음을 밝혔다.¹ 수자궁질증의 유병률은 신생아 16,000명 당 1명 미만인 것으로 알려져 있으며, 복부 종괴를 가진 신생아의 15%는 수자궁질증에 의한 것이고, 이는 수신증 다음으로 많은 신생아 복부 종괴의 원인이라는 보고도 있다.^{2,4}

이러한 생식기의 폐색은 물리관(Müllerian ducts)의 이상에 따라서 일어나게 된다. 발생학적으로 양 외측에 존재하는 한 쌍의 물리관은 임신주수 8주에 이르러 안쪽으로 이동하여 중심선 부위에서 융합하여, 10주 경 하나의 자궁질관(uterovaginal canal)을 이루게 된다. 이 구조물은 향후 자궁의 기저부와 체부, 경부 및 질 상부를 형성하게 되며, 양 물리관이 융합하며 형성한 자궁질관의 증격은 점차 퇴축하여 사라지게 된다. 이러한 융합의 실패는 중복자궁이나 질 폐색 등 다양한 형태의 자궁이나 질의 기형으로 나타날 수 있다.^{4,5} 임상적으로 수자궁질증이 발현하기 위해서는 위에서 언급한 해부학적 이상에 동반하여 모체의 과도한 에스트로겐이 태아의 자궁과 자궁경부의 선을 자극하여 분비물이 축적되어야 한다.^{1,6} 75%의 여자 신생아에서 질 분비물이 있으며, 일부는 가슴의 발달과 젖의 분비를 보이기도 한다. 또한 수자궁질증 환자에서 축적된 체액은 정상 성인의 질 분비물과 성분이 비슷하다는 보고가 있다. 이 두 가지 사실이 모체 호르몬이 태아에 영향을 미쳐서 수자궁질증의 발현에 영향을 미친다는 근거가 된다.⁶ 하지만 이러한 호르몬의 영향은 일정하지 않아서, 처녀막 폐쇄증이나 질 폐색이 있는 모든 태아가 수자궁질증을 나타내지는 않으며, 이러한 분비물의 양도 매우 다양해서 생리가 시작되기 전까지 발견이 안되는 경우도 있고 출생시 1 L 가량의 분비물이 차있어 호흡곤란 등의 증세를 나타내는 경우도 있다.^{1,6,7}

1984년 Davis 등이 산전에 초음파를 이용하여 수자궁질증을 진단한 예를 처음 보고하였다. 산전 진찰의 장점은 만성 폐색으로 인한 장기간의 후유증이 발생하기 전에 적절한 치료를 할 수 있다는 점이다.¹³ 산전진찰은 대부분 질의 형성이 완료되는 임신 제3삼분기에 진단되

나,^{7,8,13} 25주에 수자궁질증을 진단한 보고도 있었다.² 초음파 소견은 골반에서 기원하고 방광의 뒤로 보이는 초음파 투과성의 긴 종괴 혹은 경계가 뚜렷한 중간에코를 보이는 고형 종괴로 관찰되는데, 이는 분비물 속에 포함된 상피세포나 글리코겐 등이 에코를 형성하기 때문이다.^{4,7,9,11} 다른 소견으로는 액체 층이 관찰되기도 하며 태변이 저류된 양상을 보인다는 보고도 있다.⁷ 또한, 드문 경우에, 종괴가 회음부로 융기되는 모습을 초음파상으로 확인할 수 있으며,¹³ 방광이 보이지 않는 경우엔 확장된 방광으로 보일 수도 있다.⁹

초음파 상으로 감별진단 해야 할 질환으로는 장간막낭(mesenteric cyst)이나 난소 낭종, 확장된 요관이나 장을 들 수 있으며, 특히 후자 두 가지는 수자궁질증 자체와 연관되어 나타날 수 있다. 드물게 요막관 낭종(urachal cyst), 신경모세포종, 기형종, 전방 수막탈출증과 감별해야 하는데, 이들은 크지 않고, 회음부로 융기되지 않는 특징을 가지고 있다.^{7,13}

산전 초음파는 가장 기본적이고 널리 쓰이는 산전 진찰의 방법이지만, 최근 들어 산전 초음파로 진단이 어려운 경우나 감별진단이 필요한 경우에 태아자기공명영상이 많은 도움을 주는 것으로 보고되고 있다.¹⁴ 태아자기공명영상은 임신부의 비만이나, 양수과소증, 특정한 태아의 위치에 따른 초음파 검사의 한계를 보완해 줄 수 있는 방법으로, 이전에는 검사에 걸리는 시간이 많아서 태아의 움직임에 따른 허상(artifact)으로 인해 정확한 검사가 힘들었으나, 90년대 후반 고속으로 검사를 시행할 수 있는 방법이 등장한 이후(ultrafast pulse sequence) 정확한 태아의 영상을 얻어내는 일이 가능해짐에 따라 복잡한 태아 기형을 진단하는 데 있어 유용한 방법으로 등장하였다.¹⁴

본 증례의 경우, 산전 초음파로 발견된 골반 내의 종괴가 방광 뒷편에 위치하고 있었고, 그 모양과 에코를 보았을 때 직장 또는 항문의 폐색이나 수자궁질증, 또는 난소의 종양 등을 고려할 수 있었으며, 태아자기공명영상을 통해 보다 명확한 방광-종괴-직장의 위치관계를 파악할 수 있었고, 그 세 질환의 감별진단에 도움을 주었다. 이러한 검사를 통해 처녀막 폐쇄증에 의한 수자궁질

증을 진단할 수 있었고, 생후 2일째, 간단한 절개술만으로 성공적으로 치료한 예라 할 수 있겠다.

수자궁질증은 드문 선천성 질환이지만, 적절한 진단과 치료가 시행되지 않았을 때에는 심각한 합병증 및 신생아 사망을 유발할 수 있는 질환이다. 산전 초음파 및 태아자기공명영상 검사는 수자궁질증을 조기에 정확히 진단할 수 있는 좋은 방법이며, 적절한 치료를 통해 신생아의 예후에 많은 도움을 줄 수 있을 것으로 생각된다.

본 저자들은 25세 여성에서 임신 32주 경에 산전 초음파 및 태아자기공명영상 검사로 진단된 처녀막 폐쇄증으로 인한 수자궁질증 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Spencer R, Levy DM. Hydrometrocolpos: report of three cases and review of the literature. *Annals of Surgery* 1962; 155: 558-71.
2. Winderl LM, Silverman RK. Prenatal diagnosis of congenital imperforate hymen. *Obstet Gynecol* 1995; 85: 857-60.
3. Radman HM, Askin JA, Kolodner LJ. Hydrometrocolpos and hematometrocolpos. *Obstet Gynecol* 1966; 27: 1-6.
4. Stallion A. Vaginal obstruction. *Semin Pediatr Surg* 2000; 9: 128-34.
5. Nguyen L, Youssef S, Guttman M, Ahlgren LS, Schlechter R. Hydrometrocolpos in neonate due to distal vaginal atresia. *J Pediatr Surg* 1984; 19: 510-4.
6. McKusick VA, Bauer RL, Koop CE, Scott RB. Hydrometrocolpos as a simply inherited malformation. *JAMA* 1964; 189: 119-22.
7. Boulot P, Deschamps F, Hedon B, Laffargue F, Viala JL. Prenatal diagnosis of an abdomino-pelvic hydrometrocolpos; a case report. *Eur J Obstet Gynecol Repr Biol* 1991; 40: 233-6.
8. Saxena R, Divan G, Long AM, Arulambalam KJ, Nicolaides KH. Fetal hydrometrocolpos. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1993; 3: 360-1.
9. Mirk P, Pintus C, Specu S. Ultrasound diagnosis of hydrocolpos: prenatal findings and postnatal follow-up. *J Clin Ultrasound* 1994; 22: 55-8.
10. Geipel A, Berg C, Germer U, Ahrens P, Gloeckner-Hofmann K, Moller J, et al. Diagnostic and therapeutic problems in a case of prenatally detected fetal hydrocolpos. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2001; 18: 169-72.
11. Hill SJ, Hirsch JH. Sonographic detection of fetal hydrometrocolpos. *J Ultrasound Med* 1985; 4: 323-5.
12. Jacquemyn Y, De Catte L, Vaerenberg M. Fetal ascites associated with an imperforate hymen: sonographic observation. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1998; 12: 67-9.
13. Davis GH, Wapner RJ, Kurtz AB, Chhibber G, Fitz Simmons J,

- Blocklinger AJ. Antenatal diagnosis of hydrometrocolpos by ultrasound examination. J Ultrasound Med 1984; 3: 371-4.
14. Sandrasegaran K, Lall C, Aisen AA, Rajesh A, Cohen MD. Fast fetal magnetic resonance imaging. J Comput Assist Tomogr. 2005; 29: 487-98.

「국문초록」

수자궁질증은 비뇨생식기계의 폐색과 점액의 축적으로 인해 질과 자궁이 늘어나는 드문 선천성 기형이다. 수자궁질증은 신생아에게 치명적인 호흡곤란과 요로폐색 등의 합병증을 일으킬 수 있으므로, 정확한 진단과 치료가 필수적이다. 산전 초음파를 이용하여 수자궁질증을 진단한 보고는 많이 있었으나, 태아자기공명영상을 이용해 진단한 보고는 없었다. 본 저자들은 처녀막 폐쇄증으로 인한 수자궁질증을 태아자기공명영상으로 진단한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어 : 수자궁질증, 선천성 질 폐색, 산전 진단, 태아자기공명영상
