

단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아에서 신장 초음파 검사의 유용성

가톨릭대학교 의과대학 소아과학교실, 전남대학교 의과대학 소아과학교실*

강주미 · 송은송* · 국진화* · 이형신 · 김소영 · 최영륜*

Usefulness of Routine Renal Sonography Screening for Healthy Infants with Isolated Single Umbilical Artery

Ju-Mi Kang, M.D., Eun-Song Song, M.D.*, Jin-Hwa Kuk, M.D.*, Hyung-Sin Lee, M.D.,
So-Young Kim, M.D. and Young-Youn Choi, M.D.*

Department of Pediatrics, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul,
Chonnam National University Medical School*, Gwangju, Korea

Purpose : It is known that single umbilical artery is frequently associated with gastrointestinal or urogenital anomaly, however, routine renal sonography has been debated in healthy neonate with isolated single umbilical artery. This study is designed to determine the usefulness of routine renal sonography in apparently healthy infants with an isolated single umbilical artery.

Methods : Thirty healthy neonates with a single umbilical artery without a major anomaly from January 1995 to July 2002 were enrolled. The authors investigated the clinical background of babies and their mothers after renal sonography after 72 hours of age. When the abnormalities were found at the first renal sonography, the severity of hydronephrosis and degree of obstruction and renal function were analyzed by follow up renal sonography, voiding cystourethrography(VCUG) and technetium-99m-dimercaptosuccinic acid(DMSA) scan or technetium-99m-mercaptoacetyl-triglycerine (MAG3) scan.

Results : Among the 30 healthy patients with isolated single umbilical artery, five patients(16.7%) showed abnormalities on first renal sonography with one major(3.3%) and four(13.4%) minor renal anomaly(minimal or mild hydroneohrosis). One major renal anomaly(severe hydronephrosis) showed severe decreased renal function on MAG3 scan without reflux, and the other four minor regressed spontaneously on follow up study.

Conclusion : The value of routine early renal sonography for detecting renal anomaly in healthy infants with an isolated single umbilical artery remained unclear because most of the anomalies would regress spontaneously in the follow up study. (*J Korean Pediatr Soc* 2003;46:854-857)

Key Words : Single umbilical artery, Renal sonography, Renal anomaly

서 론

신생아의 제대는 Wharton's jelly에 둘러싸인 2개의 제대 동맥과 1개의 제대 정맥으로 구성되어 있다. 단일 제대 동맥은 르네상스시대 발견 기록이 있으나, 그 중요성에 대해서는 인지하지 못하다가 1955년 Bernirsche와 Bourne¹⁾의 후향적 연구에서 심각한 병리학적 문제를 가진 단일 제대 동맥 환자 55명 중 27명

에서 선천성 기형이 동반됨이 밝혀진 후 주목받기 시작했다.

그 후 단일 제대 동맥의 빈도와 동반 기형의 종류 및 동반 등에 대한 연구 결과는 매우 다양하였다. 단일 제대 동맥은 염색체 이상과 선천성 기형에 동반해서 잘 나타나지만, 이런 질환에 속하지 않고 단독으로 나타날 수도 있다. 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아에서 과연 어느 수준까지 검사를 할 것이며 추적 관찰이 필요한지 논란이 되어왔는데 그 중 가장 논란 대상이 되고 있는 것은 요로 기형 동반 가능성에 대한 검사이다

요로 기형은 유·소아의 선천성 기형 중 가장 빈번하게 발견되고 있는 것으로 Jacob 등²⁾의 보고에 의하면 약 35-40%이며 출생 신생아의 약 10%는 비뇨 생식계 기형을 가진다고 한다.

접수 : 2003년 5월 23일, 승인 : 2003년 7월 11일

책임저자 : 최영륜, 전남대학교병원 소아과

Tel : 062)220-6646 Fax : 062)222-6103

E-mail : yychoi@chonnam.ac.kr

단일 제대 동맥을 가진 신생아에서 이제까지의 여러 연구들을 종합해보면 약 1/3에서까지 위장관 폐색 및 요로 기형을 동반할 수 있으므로 요로 기형을 발견하기 위해 출생 72시간 이후 신장 초음파 검사를 관습적으로 시행하고 있다^{3,4}. 실제 초음파 검사상 이상이 발견되는 경우는 드물고 추적 검사상 치료할 필요가 없는 미미한 기형이 동반된 경우가 많으며 산전 초음파의 정확도가 높아짐에 따라 신장 요로 기형이 있는 신생아는 산전에 이미 발견될 수 있는 가능성이 높다.

이에 저자는 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아에서 신장 초음파 검사의 유용성을 알아보려고 본 연구를 실시하였다.

대상 및 방법

1995년 1월부터 2002년 7월까지 출생 후 이학적 검사에서 단일 제대 동맥이 발견된 건강한 신생아를 대상으로 하였으며 단일 제대 동맥이면서 중후군의 일부이거나 수술적 치료가 필요한 심각한 주기형이 동반된 경우는 제외하였다.

총 30명의 단일 제대 동맥 신생아와 그 산모를 대상으로 산모에서는 나이, 임신 주수, 분만 방법, 초경산 유무, 양수 과소 또는 과다증, 조기 양막 파수, 임신성 고혈압, 태반 출혈 유무 및 약물 복용 등의 임신력에 대해 조사하였다. 신생아에서는 출생 체중, 성별, 쌍생아 유무, 태변 착색, Apgar 점수 1분 및 5분, 염색체 검사 및 동반 기형 유무에 대해 조사하였고, 신장 초음파 검사는 생후 72시간 이전에는 생리적 체중 감소로 폐쇄가 있더라도 정상 소견을 보일 수 있기 때문에 생후 72시간 이후에 실시하였다.

신생아 신장 초음파 검사상 이상이 있는 신생아는 지속적으로 외래에서 추적 관찰을 시행하였다. 외래 추적 관찰 중 생후 4-6주에 신장 초음파를 재차 시행하여 수신증이 소실되었더라도 요로 감염이 있으면 technetium-99m-dimercaptosuccinic acid (DMSA) 스캔과 배뇨성 방광 요도 조영술(voiding cystourethrogram, VCUG)을 시행하였다. 수신증이 있으나 요관 확장 없이 수신증만 있으면 이뇨성 신주사로 technetium-99m-mercaptoacetyl triglycerin(MAG 3) 스캔을 실시하고, 요관 확장이 함께 있으면 배뇨성 방광 요도 조영술을 시행하여 방광 요관 역류 여부를 확인하였다. 역류가 없는 경우 이뇨성 신주사를 실시하여 수신증의 크기, 요로 폐쇄 정도 및 신기능 변화를 분석하고, 기능 장애와 정밀 검사 필요 여부에 따라 요로 기형을 주기형과 소기형으로 구분하였다⁵.

결 과

산모의 평균 나이는 30.5세였고 자연 분만과 제왕 절개 빈도는 각각 56.7%, 43.3%로 자연분만이 약간 더 많았다. 초산부와 경산부는 각각 12명(40%), 18명(60%)이었고 태반에 문제가 있는 산모는 2명(6.7%), 산전 문제가 있었던 산모는 12명(40%),

약물을 복용한 산모는 1명(3.3%)이었다(Table 1).

단일 제대 동맥을 가진 신생아의 평균 출생 체중은 2,780 g, 제대 주령은 38주였고, Apgar 점수는 1분 7.9, 5분 8.8이었다. 성별로는 남녀 각각 15명으로 같았으며 쌍생아는 3명으로 10.0%이었다. 태변 착색은 3명, 10.0% 있었으며 염색체 이상은 1례도 없었고 소기형을 가진 경우는 9명, 30.0%이었다(Table 2).

산전 문제가 있었던 12명의 산모를 세부적으로 살펴보면 전자간증 산모가 3명(25.0%), 조기 양막 파수 5명(41.0%), 양수 과소증 2명(16.7%), 양수 과다증 2명(16.7%)이었다. 태반에 문제가 있었던 산모는 2명으로 태반 조기박리 1명, 전치태반 1명이었다. 약물 복용력을 가진 산모는 1명으로 갑상선 기능 저하증 때문에 갑상선 호르몬 투약 중이었다. 신생아의 특성을 세부적으로 살펴보면 출생 체중별로 1,000-1,500 g 2명으로 6.6%, 1,500-2,500 g 7명 23.3%, 2,500-4,000 g 21명 70.1%이었다. 소기형을 가진 9명(30.0%)의 신생아는 모두 심장 기형을 가진 경우였는데 심방 중격 이차공 결손(ASD ostium secundum defect) 7명, 동맥관 개존(patent ductus arteriosus) 2명이었다.

신장 초음파 결과는 정상이 25명으로 83.3%, 이상이 발견된

Table 1. Characteristics of Mothers(N=30)

Age(year, M±SD)	30.5±4.1
Delivery mode	
Vaginal, n(%)	17(56.7%)
C-sec, n(%)	13(43.3%)
Parity	
Nullipara, n(%)	12(40.0%)
Multipara, n(%)	18(60.0%)
Placental problem, n(%)	2(6.7%)
Antenatal problem, n(%)	12(40.0%)
Drug history, n(%)	1(3.3%)

Table 2. Characteristics of Neonates(N=30)

Birth weight(g, M±SD)	2,780±690
Gestational age(week, M±SD)	38±2.56
Apgar score(M±SD)	
1 min(M±SD)	7.9±1
5 min(M±SD)	8.8±1.4
Sex	
Male, n(%)	15(50.0%)
Female, n(%)	15(50.0%)
Twin, n(%)	3(10.0%)
Meconium stain, n(%)	3(10.0%)
Chromosomal anomaly, n(%)	0(0.0%)
Minor anomaly, n(%)	9(30.0%)

Table 3. Results of Renal Sonography(N=30)

Renal anomaly	n(%)
None	25(83.3%)
Minor	4(13.3%)
Major	1(3.3%)

Table 4. Renal Anomaly Cases

	Severity	Renal sonography	Urine culture	Follow up sonography	Further study
Case 1	Minor	Minimal hydronephrosis	No	Negative	Negative DMSA, Negative VCUG, 1 month -UTI history hx(+)
Case 2	Minor	Minimal hydronephrosis	No	Negative	
Case 3	Minor	Mild hydronephrosis	No	Negative	
Case 4	Minor	Mild hydronephrosis	No	Negative	
Case 5	Major	Severe Lt hydronephrosis, Lt megaureter	No	No change	MAG3 : decreased Lt renal function negative VCUG

Abbreviations : DMSA, technetium-99m-dimercaptosuccinic acid; VCUG, voiding cystourethrography; UTI, urinary tract infection; Lt, left; MAG 3, technetium-99m-mercaptoacetyl triglycerin

에는 5명 16.7%이었고, 이 중 소기형이 4명으로 13.3%, 의미 있는 주기형은 1명으로 3.3%이었다(Table 3). 신장 이상이 있었던 레를 각각 살펴보면 경한 기형 4명 중 경증의 수신증이 2명, 중등도 수신증이 2명이었으나 4-8주 후 시행한 신장 초음파상 모두 자연 소실되었고 소변 배양 검사에서도 모두 음성이었다. 경증의 수신증이 있었던 두 명 중 한 명은 생후 1개월에 요로 감염증 증세가 있어 DMSA 스캔, 배뇨성 방광 요도 조영술을 시행하였으나 모두 정상이었다. 심한 수신증은 1명으로 좌측의 심한 수신증 및 좌측 거대 요관이 보여 배뇨성 방광 요도 조영술을 실시하였는데 방광 요관 역류는 없었고 MAG3 스캔 검사상 좌측 신장 기능 저하가 보이며 추후 시행된 신장 초음파상 변화 없이 외래 추적 관찰 중으로 이 경우는 이미 산전 초음파상에서 수신증이 의심되었던 환아였다(Table 4).

고 찰

단일 제대 동맥과 선천성 기형과의 관련성에 관해 보고된 연구 결과는 대상 범위와 진단 방법에 따라 결과가 다양하다^{1, 7)}. 단일 제대 동맥의 연구 대상이 출생 후 진찰에 의해 진단하는 경우^{8, 9)}, 현미경을 이용한 진단율(0.4-1.2%)에 비해 오진율이 25% 이상 높으므로 단일 제대 동맥을 놓치기 쉽고 다른 기형과의 동반 유무 또한 간과하게 될 확률이 높다^{10, 11)}. 일반적으로 진찰을 통한 단일 제대 동맥 발견율은 0.55%로 알려져 있지만, 실제로는 이보다 더 높을 것으로 생각되며 연구 대상에 유산 또는 사산아를 포함하여 부검 신생아를 대상으로 한 경우 또한 단일 제대 동맥의 발생률이 높고 다른 기형과의 관련성도 높을 것으로 사료된다¹²⁾.

단일 제대 동맥의 원인은 다인자성으로 환경적, 유전적 또는 가족적 요인에 대해 확실히 밝혀지지 않았지만 특히 trisomy 18에서 흔히 동반되므로 유전적 요인도 유추할 수 있으며^{7, 13)}, 태아의 thalidomide, phenytoin 또는 산모의 vitamin A 중독이 단일 제대 동맥과 연관 있다는 보고가 있다¹⁴⁾. 단일 제대 동맥과 성별과의 연관성에 대해 남아에서 흔하다는 보고가 있으나 아직 확실치 않다^{5, 15)}.

Peckham과 Yerushalmy¹⁶⁾는 정상 제대 동맥을 가진 신생아

에서 선천성 기형 동반율이 1.15%인 반면 단일 제대 동맥을 가진 신생아에서는 20.4%로 높다고 보고하였고, Lilja¹⁷⁾에 의한 스웨덴 보고에 의하면 정상 제대 동맥을 가진 경우 선천성 기형 동반율 2.3%에 비해 단일 제대 동맥을 가진 경우 기형 동반은 10.0%였고 이 중 11.3%가 주기형이었다고 한다.

단일 제대 동맥과 동반하는 선천성 기형 중 주 기형인 요로 기형과 관련하여 병인에 대해 설명하기는 매우 어려우나 한가지 주된 가설은 단일 제대 동맥은 두 번째 제대 동맥의 무형성증이나 위축 때문에 일어난다는 것이다^{18, 19)}.

단일 제대 동맥에 대해 발표된 Thummala⁶⁾ 보고에 의하면 연구 대상이 37개의 집단으로 많은 연구 대상이었음에도 불구하고 204명에서만 신장 초음파를 시행하였으며 이중 16.2%에서 요로 기형이 발견되었고 절반 이상이 소기형이거나 자연 소실되었으며 기형이 발견된 신생아에서 추적 검사 결과 주기형은 1명 뿐이었다. Bourke⁴⁾도 요로 기형을 동반할 확률이 일반 신생아보다는 높지만 의무적으로 신장 초음파를 실시하자고 주장하기에는 너무 작은 빈도라고 하였다.

한편 Leung과 Robson⁵⁾은 단일 제대 동맥이 발견된 건강해 보이는 신생아 150례를 대상으로 한 연구에서 신장 초음파상 18.5%에서 이상이 발견되므로 출생 후 기본적으로 신장 초음파를 실시하도록 권유하였지만 발견된 요로 기형의 절반 이상이 소기형으로 자연 소실되었으며 연구 대상이 적고 대조군이 없어 단일 제대 동맥의 상대적인 위험성이나 조기 신장 초음파 실시의 이점을 말하기는 어렵다고 하였다.

본 연구에서 단일 제대 동맥을 가진 신생아에서 신장 초음파 검사상 발견된 신장 이상은 16.6%로 일반인에서의 빈도 0.75-18%와 큰 차이가 없었고³⁾, 80.0%에서 자연 소실이 관찰되어, 건강해 보이는 신생아에서의 단일 제대 동맥은 요로 기형의 위험이 있기는 하나 다른 선천성 기형 질환에서 또 다른 기형을 가질 확률과 크게 다르지 않다고 사료되었다, 그러나 본 연구에서 단일 제대 동맥의 진단을 모두 현미경적으로 한 것이 아니고 요로 기형의 상대적인 위험도를 평가하는 대조군이 없는 문제점이 있다.

Ferencz와 Rubin²⁰⁾은 선천성 심질환 1,494례에서 요로 기형 빈도는 12.0%로 일반 영유아 1,572례에서의 2.5%보다 많았지만,

참 고 문 헌

진단에 필요한 검사는 단순히 이런 빈도에 의존하여 실시하는 것이 아니고 임상 증상과 연관지어 행해져야 하기 때문에 이 결과를 그대로 임상에 반영하는 것은 무리가 있으므로 선천성 심장병 환아에서 요로 기형을 의심할만한 증상이 없다면 관습적인 신장 초음파 검사는 고려하지 않아도 된다고 하였다.

결론적으로, 본 연구 결과 단일 제대 동맥인 경우 요로 기형의 빈도가 일반보다 약간 높았지만 대부분 소기형으로 자연 소실되는 경우가 많았다. 만약 주기형이더라도 다른 건강한 아이들에서 관습적인 추적 검사 중 발견되는 빈도와 비슷하므로 외래 관찰만 잘 이루어진다면 신생아기에 굳이 신장 초음파를 실시하여 조기 발견하는 것이 비용-이익면에서 볼 때 더 이득이라는 보장은 없다. 따라서 요로 기형에 대한 위험 요소가 특별히 없다면 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아에서 관습적으로 신장 초음파 검사를 실시하는 것은 필요하지 않다고 생각된다.

요 약

목적 : 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아의 약 1/3에서 위장관 폐색 및 요로 기형을 동반할 수 있으므로 요로 기형을 발견하기 위해 초음파 검사를 관습적으로 시행하고 있지만 실제 초음파 검사상 이상이 발견되는 경우는 드물다. 이에 저자는 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아에서 신장 초음파 검사의 유용성을 알아보고자 본 연구를 실시하였다.

방법 : 1995년 1월부터 2002년 7월까지 출생 후 이학적 검사상 단일 제대 동맥이 있는 신생아에서 단일 제대 동맥이면서 증후군의 일부이거나 수술적 치료가 필요한 심각한 질환이 동반된 경우는 제외하고 건강한 신생아 총 30명을 대상으로 하였다. 임상적 배경과 출생 72시간 이후 신장 초음파를 실시하였고, 신장 초음파상 이상이 있는 경우 지속적 추적관찰과 더불어 배뇨성 방광요도 조영술 및 technetium-99m-mercaptoacetyl-triglycerine(MAG3) 신스캔 검사를 실시하여 수신증의 크기, 폐쇄의 정도 및 신기능 변화를 분석하였다.

결과 : 총 30명의 남녀비는 1:1이었으며 평균 제태 연령은 38.0 ± 2.56 주, 평균 출생 체중은 $2,780 \pm 690$ g이었다. 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아 30명 중 신장 초음파상 이상이 발견된 레는 5명으로 16.7%이었고, 의미 있는 요로 기형은 1명으로 3.3%이었다. 이상이 발견된 5명 중 4명은 경도의 수신증으로 추적 검사상 자연 소실되었고, 1명은 심한 수신증으로 배뇨성 방광 요도 조영술상 역류는 없었고 MAG3 검사상 좌측 신장 기능 저하가 보여 외래 추적 관찰 중이다.

결론 : 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아에서 신장 초음파 검사상 발견된 신장 이상은 16.7%로 일반인에서 보이는 신장 이상의 빈도와 큰 차이는 없었고 1명을 제외한 4명(80.0%)에서 자연 소실되었으므로, 비용-이익 면에서 볼 때 단일 제대 동맥을 가진 건강한 신생아에서 관습적으로 신장 초음파 검사를 실시하는 것에 대해 고려해 볼 필요가 있다고 사료된다.

- 1) Benirschke K, Bourne GL. The incidence and prognostic implication of congenital absence of one umbilical artery. *Am J Obstet Gynecol* 1960;79:251-4.
- 2) Csecei K, Kovacs T, Hinchcliffe SA, Papp Z. Incidence and associations of single umbilical artery in prenatally diagnosed malformed, midtrimester fetuses: A review of 62 cases. *Am J Med Genet* 1992;43:524-30.
- 3) Steinhart JM, Kuhn JP, Eisenberg B, Vaughan RL, Maggicli AJ. Ultrasound screening of healthy infants for urinary tract abnormalities. *Pediatrics* 1988;82:609-14.
- 4) Bourke WG. Isolated single umbilical artery—the case for routine renal screening. *Arch Dis Child* 1993;68:600-12.
- 5) Leung AK, Robson WL. Single umbilical artery: A report of 159 cases. *Am J Dis Child* 1989;143:108-11.
- 6) Thummala MR. Isolated single umbilical artery anomaly and the risk for congenital malformations: a meta-analysis. *J Pediatr Surg* 1998;33:580-5.
- 7) Lenoski EF, Medovy H. Single umbilical artery: incidence, clinical significance and relation to autosomal trisomy. *Can Med Assoc J* 1962;87:1229-31.
- 8) Feingold M, Fine RN. Intravenous pyelography in infants with single umbilical artery. *N Engl J Med* 1964;270:1178-80.
- 9) Tortora M, Chervenak FA, Mayden K, Hobbins JC. Antenatal sonographic diagnosis of single umbilical artery. *Obstet Gynecol* 1984;63:693-6.
- 10) Jones TB, Sorokin Y, Bhatia R, Zador IE, Bottoms SF. Single umbilical artery: accurate diagnosis? *Am J Obstet Gynecol* 1993;169:538-40.
- 11) Fujikura T. Single umbilical artery and congenital malformations. *Am J Obstet Gynecol* 1964;88:829-30.
- 12) Kristoffersen K. The significance of absence of one umbilical artery. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1969;48:195-214.
- 13) Lewis AJ. Autosomal trisomy. *Lancet* 1962;1:866-7.
- 14) Kalter H, Warkany J. Experimental production of congenital malformations in strains of inbred mice. *Am J Pathol* 1961; 38:1-21.
- 15) Itoh H, Nishimura K. Single umbilical artery: a review of 37 cases. *Acta Obstet Gynecol Jpn* 1976;23:96-100.
- 16) Peckham CH, Yerushalmy J. Aplasia of one umbilical artery: incidence by race and certain obstetric factors. *Obstet Gynecol* 1965;26:359-66.
- 17) Lilja M. Infants with single umbilical artery studied in a national registry.3: A case control study of risk factors. *Pediatr Perinat Epidemiol* 1992;6:416-22.
- 18) Bourne GI, Benirschke K. Absent umbilical artery: a review of 113 cases. *Arch Dis Child* 1960;35:534-43.
- 19) Altshuler G, Tsang RC, Ermocilla R. Single umbilical artery. Correlation of clinical status and umbilical cord histology. *Am J Dis Child* 1975;129:697-700.
- 20) Ferencz C, Rubin JD, McCarter RJ, Boughman JA, Wilson PD, Brenner JI, et al. Cardiac and noncardiac malformations: observations in a population-based study. *Teratology* 1987;35:367-78.