

소아외과 영역의 선천성 응급 질환에서 산전 진단이 술후 사망률에 미친 영향

서울대학교 의과대학 외과학교실

김태훈 · 이성철 · 김현영 · 정성은 · 박귀원 · 김우기

The Impact of Prenatal Diagnosis on the Outcome of Neonatal Surgical Emergencies Evaluated by Mortality Rate

Tae-Hoon Kim, M.D., Seong-Cheol Lee, M.D., Hyun-Young Kim, M.D.,
Sung Eun Jung, M.D., Kwi Won Park, M.D. and Woo-Ki Kim, M.D.

*Department of Surgery, Seoul National University Childrens' Hospital
Seoul, Korea*

As prenatal ultrasonography becomes popular, the number of prenatal diagnosis of congenital surgical diseases is also increasing. To evaluate the impact of antenatal ultrasonography on outcome the mortality rate in neonatal surgical emergencies was studied. The authors retrospectively reviewed 281 patients (congenital diaphragmatic hernia: 44, tracheoesophageal fistula: 78, intestinal atresia: 98, omphalocele: 28 and gastroschisis: 33 who had been managed at Seoul National University Childrens Hospital, from January 1991 to December 2000. The patients were divided into two groups: group A (1991 to 1995: 139 patients) and group B (1996 to 2000: 142 patients). These two groups were subdivided into prenatally diagnosed subgroup and postnatally diagnosed subgroup. We analyzed the changes of prenatal diagnosis rate, total mortality rate, and mortality rate of subgroups. Prenatal diagnosis rate was increased significantly in group B (Group A: 24.5 % and Group B: 45.1 %). Total mortality rate of group A was 21.6 %, and that of group B was 10.6 %, showing a significant decrease in group B. However, in both group A and B, when compared antenatally diagnosed subgroup with postnatally diagnosed subgroup, the mortality rate was lower in postnatally diagnosed subgroups but statistically not significant. The authors conclude that although prenatal diagnosis rate has been increased, prenatal diagnosis itself has not resulted in significant improvement in outcome.

(J Kor Assoc Pediatr Surg 10(2):87~91), 2004.

Index Words : Prenatal diagnosis, Outcome, Mortality rate, Neonatal surgical emergencies

Correspondence : Seong-Cheol Lee, M.D., Department of Surgery, Seoul National University Childrens Hospital. #28 Younkundong, Chongno-ku, Seoul 110-744, Korea
Tel : 02)2072-3636, Fax : 02)766-3975

E-mail : leesc@plaza.snu.ac.kr

* 본 논문의 요지는 2003년도 11월 서울에서 개최된 제55차 대한외과학회 추계 통합학술대회에서 구연되었음.

서 론

산전 초음파는 다태아 임신, 태아 성장의 이상, 태반 이상, 태아 연령의 평가 등의 목적으로 시작되었으며 이러한 초음파 검사를 통한 산전 진단이 각종 선천성 질환들의 진단, 주산기 치료 및 치료 성적에 미치는 영향들에 대한 여러 보고들이 나와 있다¹⁻⁴. 특히 산전 진단 여부와 치료 성적의 향상과의 연관성에 대해 여러 이견들이 제시되고 있다³⁻⁷. 그러나 산전 진단이 가능한 특정 질환들, 특히 소아외과 영역에 속한 질환들에 대한 산전 진단율 및 진단율의 변화 양상, 그에 따른 사망률에 대한 보고는 국내에서는 아직 소수 만이 이루어져 있다¹³. 유럽에서는 Euroscan study group 등에 의해 선천성 횡격막 탈장증, 복벽 결손증(abdominal wall defect), 선천성 장 폐쇄증 등의 소아 외과 영역의 질환들에 대한 11~12개국에서의 산전 진단의 자료 및 분석 연구들이 보고된 바 있으며⁸⁻¹⁰, 그 이외에도 단일 병원이나 단일 지역에서 위의 언급한 질환들

과 선천성 식도 폐쇄증에 대한 산전 진단율 및 치료 성적에 대한 다양한 보고 및 여러 인자들에 대한 분석들이 이루어지고 있다¹¹⁻¹³. 저자들은 1991년에서 2000년까지 10년 동안 서울대학교병원 소아외과에서 응급 소아외과 질환으로 치료 받은 환자들의 의무기록을 조사하여 산전 진단율의 추이 변화와 산전 진단 유무에 따른 치료 결과를 가장 객관적인 사망률로 비교 분석하였다.

대상 및 방법

1991년 1월부터 2000년 12월까지 10년의 기간 동안 서울대학교병원 소아외과에서 치료 받은 선천성 횡격막 탈장 (44명), 선천성 식도 폐쇄증 및 기관식도 누공 (78명), 선천성 장폐쇄증 (98명), omphalocele (28명), 복벽파열 (gastroschisis, 33명)로 치료 받은 총 281명의 환자들 (표 1)을 대상으로 의무기록 검토를 통한 후향적 분석을 시행하였다. 치료 성적은 가장 객관적인 사망률로 평가하였다.

Table 1. Number of Patients and Mortality of Each Disease

	Group A			Group B		
	Pre ND	Post ND	Subtotal	Pre ND	Post ND	Subtotal
CDH	3/3	3/18	6/21	4/12	0/11	4/23
TEF	2/4	5/32	7/36	1/9	4/33	5/42
Intestinal atresia	3/22	1/24	4/46	3/28	1/24	4/52
Omphalocele	2/3	3/11	5/14	0/6	0/8	0/14
Gastroschisis	2/2	6/20	8/22	1/9	1/2	2/11
Total	12/34	18/105	30/139	9/64	6/78	15/142

Group A ; Patients from 1991 to 1995.

Group B ; Patients from 1996 to 2000.

CDH, Congenital diaphragmatic hernia; TEF, Tracheoesophageal fistula; Post ND, Postnatally diagnosed subgroup; Pre ND, Prenatally diagnosed subgroup;

Table 2. Number of Total Patients and Mortality

	Group A		Group B		Total	
	No	Mo	No	Mo	No	Mo
Pre ND	34	12	64	9	98	21
Post ND	105	18	78	6	183	24
Total	139	30	142	15	281	45

Group A ; Patients from 1991 to 1995.

Group B ; Patients from 1996 to 2000.

No, Number of patients; Mo, Number of mortality patients; Pre ND, Prenatally diagnosed subgroup; Post ND, Postnatally diagnosed subgroup;

전체 대상 환자를 A군 (1991년-1995년: 139명), B군 (1996년-2000년: 142명)으로 나누고, A, B군을 각각 산전 진단군 및 산후 진단군으로 세분하여 산전 진단율, 산전 진단여부에 따른 사망률 및 전체 사망률의 변화를 비교 분석하였다. 통계 방법은 SPSS package (피어슨 카이 제곱검정)를 이용하였다.

결 과

산전 진단율의 변화

A군의 산전 진단율은 24.5%였으며, B군의 산전 진단율은 45.1%로 B군에서 통계적 유의($p < 0.001$)가 있게 증가하였다 (표 2).

A군, B군의 사망률 비교

A군의 전체 사망률은 21.6%였다. B군의 전체 사망률은 10.6%였으며, A군과 B군에서의 전체 사망률을 비교해 볼 때 통계적으로 유의하게($p = 0.012$) 감소했음을 알 수 있었다 (표 2).

산전 진단 여부에 따른 사망률의 비교

환자 전체를 산전 진단 여부에 따라 나눠 살펴보았을 때 산전 진단을 받은 환자 군의 사망률은 21.4%였으며 산후 진단된 환자 군의 사망률은 13.1%로 통계적으로 유의하지는 않으나($p = 0.070$) 산후 진단된 환자군이 낮은 사망률을 보였다 (표 2).

A군 환자의 사망률 비교 ; A군에서 산전 진단을 받은 환자 군의 사망률은 35.5%인데 비해, 산후 진단된 환자 군의 사망률은 17.1%로 통계적으로 유의하게($p = 0.025$) 낮은 사망률을 보였다 (표 2)

B군 환자의 사망률 비교 ; B군에서 산전 진단을 받은 환자 군의 사망률은 14.1%, 산후 진단된 환자 군의 사망률은 7.7%이었다. 통계적으로 유의하지는 않으나 ($p = 0.219$), 역시 산후 진단된 환자 군의 사망률이 낮은 수치를 보였다 (표 2).

고 찰

소아 외과 영역의 질환들의 산전 진단은 산전 초음파에 대부분 의존하며 장비의 해상도의 향상, 산전 초음파의 보편화에 따른 진단 경험 축적으로 산전 진단율의 상승이 기대된다. 본 연구에 의하면 A군의 24.5%에 비해 B군에서 45.1%로 산전 진단율의 통계적으로 유의한 상승을 볼 수 있었다. 이 수치는 본 의료기관이 3차 의료기관으로 산전 진단 후 낙태되었을 것으로 생각되는 예를 감안한다면 실제의 수치는 더 높을 것으로 생각된다. 보고들에 의하면 산전 초음파가 의해 보편화되기 시작한 1980년대 초반에 산전 초음파 진단의 민감도는 14~19%대였^{14,15} 1990년대 후반에서 2000년대 초반의 증례들로 이루어진 최근 보고들에서는 70~89.8%^{2,16,17}까지의 다양한 수치로 보고되고 있으며 약 90%의 정확도를 보이는 것으로 보고되고 있다^{2,13,18,19}.

한편 사망률로 본 치료 결과를 살펴보면, A, B군에 각각 산전 진단을 받은 군이 산후 진단을 받은 군에 비해 나쁜 치료 결과를 보여 산전 진단 자체가 치료 성적의 향상을 가져오지는 못했음을 알 수 있다. 이는 이미 문헌들에서도 언급되었듯 이전에 산전 진단을 받지 못하고 원인을 알지 못한 채 주산기에 사망하였을 심한 선천성 이상을 가진 신생아들이 산전 진단되어 치료를 받게 되어 치료 성적이 오히려 더 나빠진 것처럼 나타나는 결과를 보인 것으로 생각된다²⁰⁻²².

질병의 이환 정도가 심하거나 동반 기형을 합병하는 경우에 있어 산전 진단의 확률이 높을 것이고 이 경우에 역시 산전 진단을 받은 군의 치료 성적을 떨어뜨리는 결과를 가져올 것으로 생각되어진다. 또한 산전 진단이 된 군의 경우 태아에게 행해지는 수술이나 치료가 거의 이루어지지 못하는 상태에서는 태아에게 진행되는 병태생리에 별 영향을 줄 수 없기 때문에 질병의 진행과 무관하여 산전 진단이 치료 성적에 미칠 수 있는 영향이 별로 없다고 할 수 있겠다⁴. 물론 산전 진단은 출생 후 적절하고 조속한 치료의 시작이 가능하도록 3차 병원에서 적절한 준비 속에 출산하는 장점이 있지만 그에 따른 이점이 아직은 위의 여러 가지 요인들 때문에 가려져서 객관적으로 판단되어질 수 없는 현실이다^{13,22,23}.

유 등(1997)은 산전 진단을 받은 군이 합병증 발생률, 사망률 및 평균 입원기간에서 우수한 성적을 보인 결과를

보고하였지만 이를 살펴보면 치료 받은 환자 질병 군의 불균형으로 산전 진단이 치료 성적에 미친 영향을 평가하기 어렵다. 또한 연구에 포함된 환자들의 이환 정도가 정확히 맞춰질 수 없으므로 산전 진단 그 자체만의 치료에 미치는 역할을 평가한다는 것은 매우 어려울 것이다. 초음파로 인한 산전진단이 소아외과 영역의 신생아 응급질환에서 생존율의 향상을 가져오지 않는다는 것은 태아 수술의 이론적 근거이나 낙태가 손쉽게 이루어지는 우리나라 실정에서 태아 수술의 현실적 타당성은 깊이 숙고되어야 할 것이다.

A군, B군 전체의 사망률을 비교해보면, B군에서 통계적으로 유의하게 향상된 치료 성적을 볼 수 있는데, 이는 수술 중 마취 관리 및 수술 전후의 환자 관리, 특히 중환자실의 환자 관리와 소아외과 의사의 경험 축적, 술기의 향상에 기인하는 바가 클 것으로 생각된다.

한편 omphalocele의 치료 성적에서, A군에서 사망환자의 수술까지의 소요시간은 18.4일이었고 생존한 환자의 수술까지의 소요시간은 60.0일이었으며 B군의 수술까지의 소요시간은 88.5일 이어서 일찍 수술하지 않고 지연 수술을 한 환자 군의 치료 성적이 더 좋았던 것을 알 수 있다.

결 론

1991년부터 1995년까지 치료 받은 환자 군과 1996년부터 2000년까지 치료 받은 환자 군으로 나누어 산전 초음파 진단이 치료 성적에 미친 영향을 보았을 때, 소아 외과 영역의 선천성 응급 질환의 산전 진단율은 유의하게 증가하였으나, 산전 진단 자체가 사망률로 본 치료 성적의 향상을 가져 오지 못하였다.

참 고 문 헌

1. 유수영, 김승기, 최승훈, 이국: 선천성 질환시 산전 초음파 진단의 의의. 소아외과 3(1):15-23, 1997
2. Dillon E, Walton SM: *The antenatal diagnosis of fetal abnormalities: a 10 year audit of influencing factors.* Br J Radiol 70:341-346, 1997
3. 황의호, 한애리, 오정탁, 한석주, 최승훈: 소아외과 영역에서 산전초음파 진단의 의의. 대한외과학회지 63(1): 69-73, 2002
4. Ewingman BG, Crane JP, Frigoletto FD, Lefevre ML, Bain RP, Mcnellis D, RADIUS Study Group:

- Effect of prenatal ultrasound screening on perinatal outcome.* N Engl J Med 329:821-827, 1993
5. Bucher HC, Dchmidt JG: *Does routine ultrasound improve outcome in pregnancy? Meta-analysis of various outcome measures.* Br Med J 307:13-17, 1993
 6. Skari H, Bjornland K, Bjornstad-Ostensen A, Haugen G, Emblem R: *Consequences of prenatal ultrasound diagnosis: A preliminary report on neonates with congenital malformations.* Acta Obstet Gynecol Scand 77:635-642, 1998
 7. Fisher R, Attah A, Partington A, Dykes E: *Impact of antenatal diagnosis on incidence and prognosis in abdominal wall defects.* J Pediatr Surg 31: 538-541, 1996
 8. Game E, Haeusler M, Barisic I, Gjergja R, Stoll C, Clementi M, The Euroscan Study Group: *Congenital diaphragmatic hernia: evaluation of prenatal diagnosis in 20 European regions.* Ultrasound Obstet Gynecol 19:329-333, 2002
 9. Barisic I, Clementi M, Haeusler M, Gjergja R, Kem J, Stoll C, The Euroscan Study Group: *Evaluation of prenatal ultrasound diagnosis of fetal abdominal wall defects by 19 European registries.* Ultrasound Obstet Gynecol 18:309-316, 2001
 10. Haeusler M, Berghold A, Stoll C, Barisic I, Clementi M, The Euroscan Study Group: *Prenatal ultrasonographic detection of gastrointestinal obstruction: results from 18 European congenital anomaly registries.* Prenat Diagn 22: 616-623, 2002
 11. Dillon E, Renwick M, Wright C: *Congenital diaphragmatic herniation: antenatal detection and outcome.* Br J Radiol 73: 360-365, 2000
 12. Sparey C, Jawaheer G, Barrett AM, Robson SC: *Esophageal atresia in the Northern Region Congenital Anomaly Survey, 1985-1997: Prenatal diagnosis and outcome.* Am J Obstet Gynecol 182:427-431, 2000
 13. Kalish RB, Chasen ST, Rosenzweig L, Chervenak FA: *Esophageal atresia and tracheophageal fistula: the impact of prenatal suspicion on neonatal outcome in a tertiary care center.* J Perinat Med 31:111-114, 2003
 14. Campbell S, Pearce JM: *Ultrasound visualization of congenital malformations.* Br Med Bull 39:322-331, 1983
 15. Kullendorff CM, Larsson LT, Jorgensen C: *Advantage of antenatal diagnosis of intestinal and urinary tract malformations.* Br J Obstet Gynecol 9:144-147, 1984

16. Salvator Levi: *Ultrasound in prenatal diagnosis: polemics around routine ultrasound screening for second trimester fetal malformations*. Prenat Diagn 22:285-295, 2002
17. Chen M, Lam YH, Lee CP, Tang MHY: *Ultrasound screening of fetal structural abnormalities at 12 to 14 weeks in Hong Kong*. Prenat Diagn 24: 92-97
18. Queisser-Luft A, Stopfkuchen H, Stolz G, Schlaefer K, Merz E: *Prenatal diagnosis of major malformations: Quality control of routine ultrasound examinations based on a five-year study of 20,248 newborn fetuses and infants*. Prenat Diagn 18: 567-576, 1998
19. Redkar R, Davenport M, Howard ER: *Antenatal diagnosis of congenital anomalies of the biliary tract*. J Pediatr Surg 33:700-704, 1998
20. Harrison MR, Bjordal RI, Langmark F, Fnutrud O: *Congenital diaphragmatic hernia: The hidden mortality*. J Pediatr Surg 13:227-230, 1978
21. Harrison MR, Adzick NS, Estes JM, Howell LJ: *A prospective study of the outcome for fetuses with diaphragmatic hernia*. JAMA 271:382-384, 1994
22. Skari H, Bjornland K, Haugen G, Egeland T, Emblem R: *Congenital diaphragmatic hernia: a meta-analysis of mortality factors*. J Pediatr Surg 35:1187-1197, 2000
23. Jaffray B, Mackinlay GA: *Real and apparent mortality from congenital diaphragmatic hernia*. Br J Surg 83:79-82, 1996