

## 청소년기 여아에서 만성적인 좌측 측복부 통증으로 진단된 골반울혈증후군 1례

인하대학교 의과대학 소아과학교실, 산부인과학교실\*, 진단영상의학과†

김성진 · 심혜선 · 강성길 · 손병관 · 이병익\* · 조순구† · 이지은

=Abstract =

### A Case of Pelvic Congestion Syndrome Presenting with Chronic Left Flank Pain in an Adolescent Girl

Sung Jin Kim, M.D., Hae Sun Shim, M.D., Sung Gil Kang, M.D., Byong Kwan Son, M.D.,  
Byong Ik Lee, M.D.\*, Soon Ku Cho, M.D.† and Ji Eun Lee, M.D.

Department of Pediatrics, Gynecology\*, Radiology†, College of Medicine  
Inha University, Incheon, Korea

Flank Pain is a leading indicator of renal and upper urinary tract disease or trauma, and rarely results from pelvic congestion syndrome. Although pelvic congestion syndrome occurs commonly in multi-parous women, pelvic congestion syndrome should also be considered as the cause of flank pain in an adolescent girl. We report the first case of pelvic congestion syndrome presenting with chronic left flank pain in an adolescent girl. (**J Korean Soc Pediatr Nephrol 2007;11:126-131**)

**Key Words :** Chronic flank pain, Pelvic congestion syndrome, Adolescent

### 서      론

측복부 통증이란 갈비뼈의 측면부에서 장골에 이르는 부위의 통증으로 외상 및 신장질환, 종양, 부인과 질환 등이 원인이다. 측복부 통증을 유발하는 원인으로 골반울혈증후군은 드물지만 이 유가 불분명한 측복부 통증에서 감별을 해야 하는 질환이다. 소아 청소년기에서의 국내 보고는 아직 까지 없다.

저자들은 청소년기에 만성적인 좌측 측복부 통증으로 드물게 진단된 골반울혈증후군 1례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

### 증      례

**환 아 :** 정○○, 여아, 14세

**주 소 :** 내원 2주전부터 심화된 좌측 측복부 통증

**과거력 :** 신체 부위의 외상이나 특이 약복용 등의 병력은 없었다. 4세 때 급성 충수돌기염으로 수술 받은 기왕력 이외에 수술 병력은 없었다. 초경은 12세에 있었고, 성적 접촉의 경력은 없었다.

**가족력 :** 특이 사항 없었다.

**현병력 :** 환아는 내원 1년 전부터 좌측 측복부 통증이 간헐적으로 시작되었으나 별다른 치료 없이 지냈다. 내원 2개월 전 통증의 빈도가 잦아지고 정도가 심해졌으며 갑자기 누르듯이 쿵쿵 쑤시는 양상이었다. 월경 시 통증이 더욱 심해지며, 서 있는 자세에서 악화되고 누워서 휴식을 취할 시

접수 : 2007년 3월 21일, 승인 : 2007년 4월 2일  
책임저자 : 이지은, 인천시 중구 신흥동 3가 7-206  
인하대학교 의과대학 소아과학교실  
Tel : 032)890-3617 Fax : 032)890-2844  
E-mail : anicca@inha.ac.kr

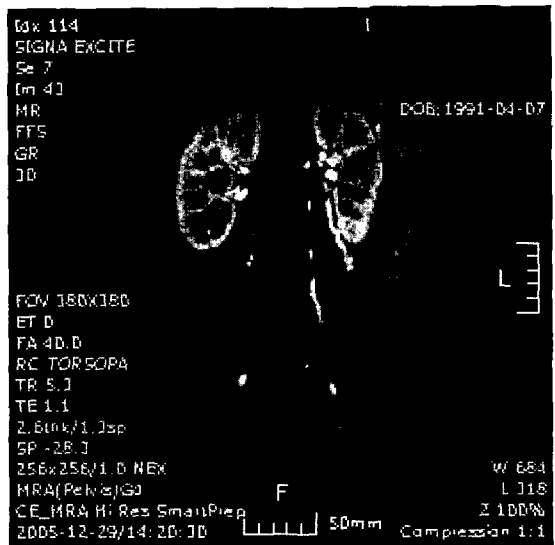
완화되는 양상이었다. 타 대학병원을 방문하여 소아청소년과, 정형외과, 신경외과, 재활의학과, 부인과 등의 진료를 받았으며 부인과 진료 후 시행된 초음파와 복부컴퓨터단층촬영에서 난소주위로 약간의 이상이 있다고 했으나 원인 질환을 찾지 못했다. 그 후 특별한 처치 없이 저절로 증상이 완화되어 지내다가 내원 2주전부터 학교 생활에 지장을 초래할 정도로 매일 하루에 수 차례씩 통증이 반복되어 본원 외래를 방문하였다. 외래 방문 시 구역과 구토를 동반한 심한 좌측 측복부 통증을 호소하였고, 발열 및 오한이나 배뇨 곤란 증세는 호소하지 않았다.

**신체 검사 소견 :** 신장 156 cm(25-50 percentile), 체중 45 kg(10-25 percentile)로 마른 체격이었고 맥박은 90회/분, 체온은 36.5°C, 호흡수 18회/분이었다. 환아는 매우 아파 보였으며 흉부 청진에서 호흡음 및 심음은 정상이었다. 복부는 팽만 되지 않았으나, 약간의 경직이 있었다. 좌측 늑골척추각에 미만성 압통이 있었다. 사지의 부종 및 피부의 이상 병변은 없었고 신경학적 검사는 정상이었다.

**검사 소견 :** 말초 혈액 검사는 혈색소 14.2 g/dL, 백혈구 6,200/mm<sup>3</sup>, 혈소판 320,000/mm<sup>3</sup>이었고, 생화학 검사에서 BUN 11.7 mg/dL, 혈청 creatinine 0.8 mg/dL, AST/ALT 18/12 IU/L, albumin 4.5 g/dL, CRP 0.04 mg/dL, ESR 4 mm/hr, amylase 79 IU/L로 정상 소견을 보였다. 요 검사 결과 혈뇨와 단백뇨 소견은 없었다. 흉부 및 복부 X-선 촬영은 정상이었다. 내원 시 선별 검사로 신장 초음파 검사를 시행한 결과 좌측 신장의 기형, 신요로 결석 등의 특이 소견은 보이지 않았으며 정밀 검사를 위해 입원하였다. 복부 자기공명 혈관 조영술과 복부 대동맥 및 신혈관, 골반혈관 조영술을 실시하였으며, 복부대동맥 조영술에서 양측 신정맥은 각각 한 개로 정상 크기와 모양을 보였고 지연 영상(delayed phase)에서 우측 신정맥 혈류는 정상 배액을 하고 있는 반면 좌측 신정맥의 혈류 대부분은 골반강까지 7.9 mm

크기로 염주알 같이 확장된 좌측 난소정맥과 잘 발달되어있는 좌측 후복막 측부혈관(retroperitoneal collateral vessel)에 의해 좌측 장골정맥(left iliac vein)으로 배액 되는 소견을 보이고 있어 골반울혈증후군으로 진단되었다(Fig. 1). 또한 기정맥(azygos vein) 및 하대정맥(Inferior vena cava)로의 혈류 배액도 관찰되었으며 좌측 신정맥을 통한 하대정맥으로의 혈류 배액이 동시에 관찰되었다(Fig. 2). 좌측 신실질의 관류와 배출은 정상이었고 좌측 신정맥이 복부대동맥과 상장간막동맥(Superior mesenteric artery) 사이에서 압박되는 Nutcracker 현상은 없었다. 상행 하대정맥 조영술에서 폐쇄 병변은 보이지 않았다.

**치료 및 경과 :** 입원 후에도 하루에도 여러 번 구역과 구토를 동반한 좌측 측복부 통증을 호소하였으며, 발열 등의 염증 반응을 시사할 만한 증상은 없었다. 통증 완화제 및 보존적인 치료에 효과가 없었다. 골반울혈증후군으로 진단 후 부인과로 전과되었다. PCS의 치료 중 호르몬제가 효과가 있을 수 있다는 보고가 있어 medroxyproge-



**Fig. 1.** Most of the blood flow from the left renal vein drained to the left iliac vein through the left ovarian vein, which was dilated and had a bead-like appearance with left retroperitoneal collateral vessels. These findings suggest that the patient had pelvic congestion syndrome.

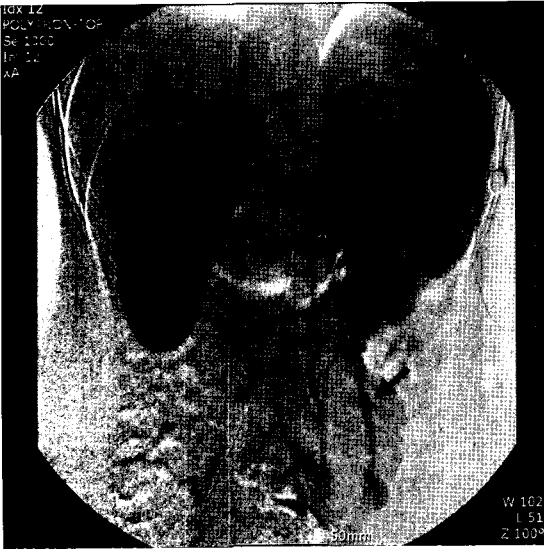


Fig. 2. The blood also drained to the azygous vein, inferior vena cava, and through the left renal vein to the inferior vena cava.

sterone을 복용하기 시작하였으며, 수 일 후부터 증상 완화되어 퇴원하였다. 이후 외래 경과 관찰 중에 다시 통증의 악화와 호전이 반복되던 중 수 개월 뒤부터 정신과적인 치료를 병행하기 시작하면서 증상이 상당부분 호전되었고, 진단 후 1년이 지난 현재는 아무런 약물 복용을 하지 않고 일상 생활을 하고 있는 상태이다.

## 고 찰

소아 청소년기의 측복부 통증은 소아 청소년과 전문의들이 환자 진료 중 흔하게 마주치게 되는 주된 증상의 하나이다[1]. 대부분의 소아청소년과 전문의는 먼저 신 요로계 질환이 원인일 가능성을 고려하여 검사하게 되며 신체검사 및 여러 검사를 시행하기도 하나 기질적인 이상을 발견하지 못하는 경우 다음 단계의 환자 관리를 고민하는 어려움에 처하기도 한다. 본 증례는 위와 같은 대표적인 경우의 일례로 타 병원에서 관련된 여러 과의 진료를 받았으나 원인을 찾지 못하였고 지속되는 통증으로 인하여 환자 보호자가 자의로 병원을 전원 하였다.

측복부 통증을 일으키는 원인 질환으로 신 외상, 신 요로 결석, 급성 신우신염, 감염 후 급성 사구체신염, 폐색성 요병증, 다낭성 신 증후군, 신주위 농양, 신 허혈, 신정맥 색전증, 신종양 등의 신 요로계 질환이 있으며, 위장관계 질환으로는 염증성 장질환, 췌장염, 비장 비대 등이 있고, 드물게 부인과적 질환 등이 있다[1, 2].

부인과적 질환 중 골반울혈증후군(pelvic congestion syndrome, 이하 PCS)은 측복부 통증을 일으키는 흔하지 않은 원인 질환이다[3-5]. PCS란 골반 정맥의 확장 및 울혈로 인하여 만성적인 복통 및 불편감이 나타나는 질환으로, 하복부 동통과 요통, 만성 피로증, 과민성 대장증후군, 비정상 자궁출혈 등의 증상을 동반하기도 한다[3-5]. 그 밖에도 월경불순이나 방광자극 증상으로 인한 질박뇨가 나타날 수 있으며, 두통과 소화장애 등의 부수적 증상과 감정의 불안정, 우울증, 불안증이 동반될 수 있다[3, 4]. 진단 기준은 임상 증상이 있으면서 영상의학적으로 난소정맥의 직경이 6 mm 이상 확장되어 있고, 측부 혈관 발달이 증명되어야 한다[5, 6]. 골반 정맥류(pelvic varicosity)를 가진 환자에서 늘어난 난소정맥에 의한 요관의 압박으로 신 산통(renal colic)이 나타날 수 있으며 이를 난소정맥증후군(Ovarian vein syndrome)이라고 한다[7, 8].

PCS의 발생 기전에 대해서는 아직 명확히 알려져 있지 않으나, 가능한 원인으로서는 해부학적으로 정맥의 이상에 의한 원인, 내분비적인 호르몬 요인, 정신적인 요인들이 있겠다. PCS는 주로 30-40대의 경산부에서 호발 하는데 이는 임신 시 혈류량이 평소보다 수 십 배 상승하여 특히 골반 내 난소정맥의 판막 손상과 확장을 유발하여 골반 울혈이 야기되는 것으로 설명된다[3-6]. 특히 좌측 난소정맥에서의 PCS 발생이 더 흔하며, 그 이유로 난소 정맥 내 판막의 선천적 결핍이 좌측이 더 많고, 많은 PCS 환자들이 난소 정맥 내 불완전한 판막을 지니는데, 좌측이 우측에 비해 더 많이 발생하기 때문이다[13]. 또한 좌측 난소정맥이

우측에 비해 더 길고, 꺾인 각도가 더 크고, 우측 난소정맥은 바로 하대정맥으로 연결이 되지만, 좌측 난소정맥은 좌측 신정맥을 경유 하대정맥으로 배액되므로 배출 경로의 폐색 즉, 좌측 신정맥의 압박, 하대정맥의 기형, 간문맥 고혈압(portal Hypertension) 등의 해부학적인 이유로 좌측 난소정맥의 역류가 유발되어 발생할 수도 있다[14, 15].

특히 Nutcracker 증후군에 의한, 좌측 신정맥의 외부압박으로 좌측 신정맥의 압력 증가에 따른 2차적인 PCS의 발생도 알려져 있다[12-13]. d'Archembeau 등에 따르면 PCS환자 성인 총 66명 중 무려 83%(40명)에서 Nutcracker현상이 발견되어 PCS의 주된 발병 요인이 지적되었다[13]. 좌측 신정맥 압박 따른 Nutcracker 증후군의 등급은 1-3등급(grade I: Extrinsic impression with retrograde filling of paralumbar veins and/or ovarian vein, grade II: Extrinsic compression with retrograde filling of side branches including the ovarian vein and reflux towards the renal hilum, grade III: Total "cut-off" of the renal vein)으로 분류되는데 2등급 이상이 78%(28명)로 PCS 환자에서는 좌측 신정맥의 압박 정도가 심함을 알 수 있었다[13]. 본 증례에서는 좌측이라는 통증의 위치와 서 있는 자세에서 심해지고 누우면 완화를 보이는 통증의 임상양상으로 Nutcracker 증후군이 원인일 가능성을 고려하였으나 혈관 조영술에서 Nutcracker 현상은 없었다.

PCS의 발생기전 중 호르몬 요인으로는 estradiol 등의 난소호르몬이 직, 간접으로 정맥혈관의 확장을 일으키기도 하며 말초혈액에 비해 난소정맥에서 호르몬의 농도가 월등히 높기 때문에 월경주기전 정맥혈관 확장이 일어난다고 한다[14-15]. 정신적인 요인에 의한 PCS발생은 보통 이외에 불안, 정서장애를 같이 호소하는 환자가 많고, 이를 치료하면 통증 또한 호전되는 것으로 보아 관여하는 것으로 사료되나[19]. 특정한 원인인 신

경전달물질에 대해서는 알려진 바 없다

본 증례는 전형적인 PCS환자와는 다르게 임신의 기왕력이 없고 호발 연령도 맞지 않으며 Nutcracker 증후군이나 하대정맥 기형 등의 해부학적인 혈관 구조 이상도 없었다. 저자들은 남자에서의 정계 정맥류의 발생 원인이 정맥 내 판막 이상으로 인한 혈액의 저류이듯 청소년기 여자의 PCS발생은 선천적인 정맥 내 판막의 결핍이나, 난소정맥의 판막기능부전 등으로 점차적으로 혈관이 확장되고 울혈이 발생하여 통증을 야기했을 가능성을 추측해 보았으나 알 수는 없다. 또한 청소년기에서 성인기까지의 PCS 경과를 아직까지 알려져 있지 않지만, 성인기 임신 후에 많이 발생하는 PCS 환자의 일부는 사춘기 전후로 골반 내 혈관 울혈이 시작되었을 가능성도 생각해 보았다.

본 증례의 임상 경과로 볼 때 청소년기의 PCS 발생은 사춘기 호르몬의 급격한 변화와 정신적인 요인도 관여할 것으로 여겨진다. 현재의 투약 없이 증상이 완화된 상태에서 혈관조영술을 재촬영을 한다면 PCS 발생기전 이해에 도움이 될 수 있겠지만, 환자의 거부로 시행하지 못했다. PCS의 치료는 아직 확립 되어있지 않으며, 수술적 치료[16, 17]와 호르몬 치료[18, 19] 및 정신과적인 치료[19]로 나뉜다. 본 증례와 같이 청소년기에 진단이 되면 치료는 보존적인 치료가 선행되어야 할 것이며 치료방법의 정립을 위해 더 많은 수의 증례 보고가 이루어져야 한다.

성인기의 PCS와 Nutcracker 증후군의 관련성은 기존에 이미 알려져 있으나[12-13], 소아 청소년기의 Nutcracker 증후군이 PCS를 유발하는 발병률은 아직 알려져 있지 않다. 흔히 Nutcracker 증후군은 자연소실이 될 수 있는 비교적 양호한 질환으로 알려져 있으며 평균 1.2년간 자연 소실이 59%라는 국내 보고[20]도 있으나 지속되는 경우 지속적인 혈뇨나 단백뇨, 만성 피로 증후군, 정계정맥류, 월경 불순, 전신성 고혈압을 유발할 수 있는 질환으로[20] PCS 유발 등의 합병증 발생이 가능하다. 따라서 조기 발견 및 장기적 추적 관찰

로 소아기에서 성인기로 이행되는 기간 동안 Nutcracker 증후군의 자연 경과를 파악할 필요가 있겠다. 또한 좌측 신정맥의 압박정도에 따라 발현되는 임상 양상이 달라질 수 있으므로 Nutcracker 증후군의 중증도 평가도 중요하다.

결론적으로 청소년기의 측복부 통증을 유발하는 원인 질환으로 드물지만 PCS를 고려해야 한다.

측복부 통증은 신, 상부 요로계 질환의 대표적인 척도로 여겨지나 드물게 골반울혈증후군도 감별해야 한다. 골반울혈증후군은 가임기 경산부 여성에서 호발하나 소아청소년기에 원인이 불명확한 측복부 통증을 호소할 때 고려해야 할 질환이다. 저자들은 청소년기 여아에서 만성적인 좌측 측복부 통증으로 진단된 골반울혈증후군 1례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

### 한 글 요약

측복부 통증은 신, 상부 요로계 질환의 대표적인 척도로 여겨지나 드물게 골반울혈증후군도 감별해야 한다. 골반울혈증후군은 가임기 경산부 여성에서 호발하나 소아청소년기에 원인이 불명확한 측복부 통증을 호소할 때 고려해야 할 질환이다. 저자들은 청소년기 여아에서 만성적인 좌측 측복부 통증으로 진단된 골반울혈증후군 1례를 경험하였기에 보고하는 바이다.

### 참 고 문 헌

- 1) Joy AW, Thomas MB, Melinda FD. Systemic review of treatments for recurrent abdominal pain. *Pediatrics in review/American Academy of Pediatrics* 2003;111:1-11.
- 2) Ali KS, Jayachandran S, Desai PG, Bonheim P. Renal colic, a presenting symptom of pelviureteric varices. *Int Urol Nephrol* 1985; 17:11-4.
- 3) Hobbs JT. The pelvic congestion syndrome. *Practitioner* 1976;216:529-40.
- 4) Beard RW. Clinical features of women with chronic lower abdominal pain and pelvic congestion. *Brit J Obstet Gynaec* 1989;96: 153-61.
- 5) Beard, RW, Highman, JH, Pearce, S, Reginald, PW. Diagnosis of pelvic varicosities in women with chronic pelvic pain. *Lancet* 1984;2:946-9.
- 6) Chung MH, Chu YH. Comparison of treatments for pelvic congestion syndrome. *Tohoku J. Exp. MED* 2003;201:131-8.
- 7) Melnick GS, Bramwit DN. Bilateral ovarian vein syndrome. *AM J roentgenol Radium Therapy and Nuclear Medicine* 1971;113:509-17.
- 8) Reynolds SRM. Right ovarian vein syndrome. *Obstet Gynecol* 1971;37:308-13.
- 9) Ahlberg N. Circumference of the left gonadal vein. *Acta Radiol* 1965;3:503-12.
- 10) Perlman SJ. Varix of the left gonadal vein *J Ultrasound Med* 1993;12:483-5.
- 11) Coolsaet BLRA. Ureteric pathology in relation to right and left gonadal veins. *Urology* 1978;12:49-54.
- 12) Hartung O, Grisoli D, Boufi M, Marani I, Hakam Z, Barthelemy P, et al. Endovascular stenting in the treatment of pelvic vein congestion caused by nutcracker syndrome: lessons learned from the first five cases. *J Vasc Surg* 2005;42:275-80.
- 13) d'Archambeau, Maes M, De Schepper AM. The pelvic congestion syndrome: role of the Nutcracker phenomenon and results of endovascular treatment. *JBR-BTR* 2004;87:1-8.
- 14) Baird DT, Fraser LS. Concentration of oestrogen and oestradiol in follicular fluid and ovarian venous blood of women. *Clinical Endocrinol* 1975;4:259.
- 15) McCausland AM, Holmes F, Trotter AD Jr. Venous distensibility during menstrual cycle. *Am J Obstet Gynecol* 1963;68:640.
- 16) Beard, RW, Kennedy, RG, Gangar, KF. Bilateral oophorectomy and hysterectomy in the treatment of intractable pelvic pain associated with pelvic congestion. *Br J Obstet Gynaecol* 1991;98:988-92.
- 17) Venbrux AC, Chang AH, Kim HS, Montague BJ, Hebert JB, Arepally A, et al.

- Pelvic congestion syndrome(pelvic venous Incompetence): impact of ovarian and internal iliac vein embolotherapy on menstrual cycle and chronic pelvic pain. *J Vasc Interv Radiol* 2002;13:171-8.
- 18) Soysal, ME, Soysal, S, Vicdan, K, Ozer, S. A randomized controlled trial of goserelin and medroxyprogesterone acetate in the treatment of pelvic congestion. *Hum Reprod* 2001;16:931-9.
- 19) Farquhar, CM, Rogers, V, Franks, S. A randomized controlled trial of medroxyprogesterone acetate and psychotherapy for the treatment of pelvic congestion. *Br J Obstet Gynaecol* 1989;96:1153-62.
- 20) JM Kim, YJ Choi, JS Lee. Spontaneous resolution of childhood Nutcracker syndrome. *J Korean Soc Pediatr Nephrol* 2006;10:213-8.