



# 고혈압 과거력이 없는 여성에서 출산 후 신동맥 파열로 발견된 양측 신동맥 섬유근이형성증 1예

가톨릭대학교 의과대학 <sup>1</sup>내과학교실, <sup>2</sup>방사선과학교실, <sup>3</sup>산부인과학교실

김은은<sup>1</sup> · 원유동<sup>2</sup> · 김연희<sup>3</sup> · 신인혜<sup>3</sup> · 김영옥<sup>1</sup>

## A Rare Case of Fibromuscular Dysplasia with Postpartum Renal Artery Rupture in a Non-Hypertensive Woman

Eun-Eun Kim<sup>1</sup>, Yoodong Won<sup>2</sup>, Yeon-Hee Kim<sup>3</sup>, Inhye Shin<sup>3</sup>, and Young Ok Kim<sup>1</sup>

Departments of <sup>1</sup>Internal Medicine, <sup>2</sup>Radiology, <sup>3</sup>Obstetrics and Gynecology, The Catholic University of Korea, College of Medicine, Seoul, Korea

Fibromuscular dysplasia (FMD) of the renal artery is a non-atherosclerotic, non-inflammatory vascular disease that causes stenosis, aneurysm, dissection, and occlusion of the vessel. We report a rare case of a postpartum FMD patient who presented with spontaneous acute perirenal hematoma due to renal artery aneurysm rupture after cesarean section. The 40-year-old patient presented with sudden onset of abdominal pain 2 days after an elective cesarean section performed at full gestational term. A computed tomography scan of the abdomen revealed perirenal hematomas with signs of FMD in both renal arteries. The bleeding was successfully controlled by transcatheter arterial embolization. Short-term continuous renal replacement therapy was performed until her renal function recovered. FMD of the renal artery is rare in pregnant patients. Additionally, aneurysm rupture can be life threatening and requires immediate medical attention and prompt management. (Korean J Med 2021;96:438-442)

**Keywords:** Fibromuscular dysplasia; Postpartum hemorrhage; Renal artery

### 서 론

신동맥의 섬유근이형성증(fibromuscular disease, FMD)의 전체 인구의 유병률은 알려져 있지 않다[1]. 전체 환자의 약 90%는 여성으로, 주로 중년 여성에서 우세하게 나타나는 질환으로

신동맥 협착에 의한 고혈압, 신부전증이 가장 흔하며 드물지만 치명적인 합병증으로 신동맥 박리와 파열이 있다[1,2]. 신동맥 파열은 주로 혈관벽이 확장되어 약해지는 동맥류가 합병된 부위에서 갑작스럽게 혈압이 상승하는 경우에 나타난다[3]. 젊은 임신부에서 FMD에 의한 동맥류가 동반되어 있는 경우에

Received: 2021. 1. 25  
Revised: 2021. 2. 26  
Accepted: 2021. 3. 1

Correspondence to Young Ok Kim, M.D.  
Department of Internal Medicine, The Catholic University of Korea, Uijeongbu ST. Mary's Hospital, 271 Cheonbo-ro, Uijeongbu 11765, Korea  
Tel: +82-31-820-3347, Fax: +82-31-847-2719, E-mail: cmckyo@catholic.ac.kr

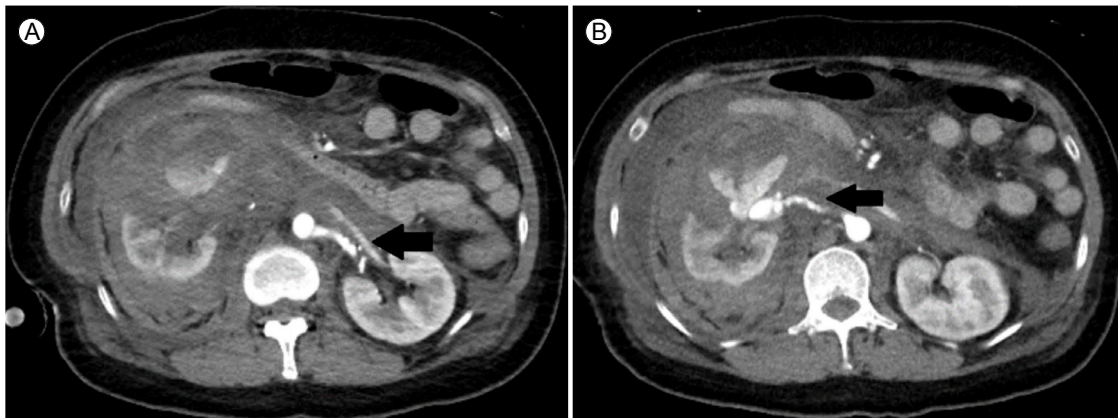
Copyright © 2021 The Korean Association of Internal Medicine  
This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

는 갑작스럽게 혈압이 상승하는 시기인 출산 전후에 신동맥 파열에 의한 출혈이 발생하기 쉽다[3]. 출산과 관련된 신동맥 파열은 출산과 관련된 합병증이나 제왕절개술 등과 같은 수술 합병증으로 오인될 수 있어 진단과 치료가 늦어져 치명적인 결과를 야기할 수 있다.

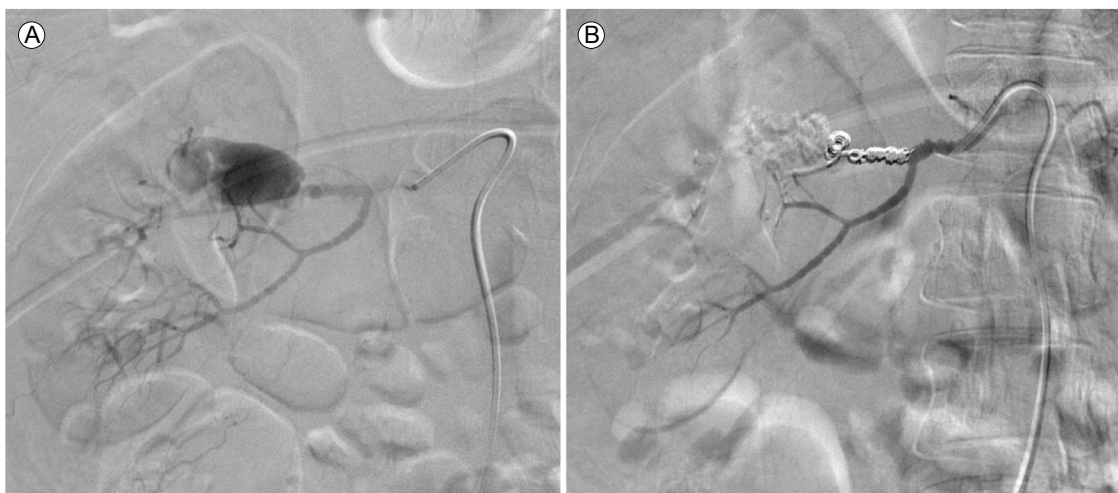
저자들은 최근 고혈압이나 FMD의 가족력과 과거력이 전혀 없는 건강한 산모에서 제왕절개술을 통한 출산 후 2병일에 갑작스럽게 복통과 질출혈로 내원한 환자에서 신동맥 FMD의 합병증인 동맥류에 의한 신동맥 파열을 진단하고 신동맥 색전술로 성공적으로 치료한 경험이 있기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

내원 2일 전 제왕절개술을 받은 40세 산모가 갑자기 발생한 우상복부와 우하복부 통증을 호소하여 타 병원에서 전원 되었다. 흡연력은 없었고 음주력은 20년 전부터 한 달에 한 두 번, 1회 당 맥주 한 병 정도였고 임신 중 금주 상태였다. 고혈압에 대한 가족력과 과거력 모두 없었으며 임신 기간 동안 혈압은 정상이었다. 제왕절개술 시 혈압은 정상 범위를 유지하였으며 출혈 등의 합병증 소견은 없었다. 응급실 내원 당시 혈압 80/50 mmHg, 맥박수 99회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.4°C였다. 의식은 명료하였고 우상복부와 우하복부의 압통이 확인되었



**Figure 1.** (A, B) Axial contrast-enhanced computed tomography image of the abdomen showing the string of beads appearance of both renal arteries (arrow).



**Figure 2.** Interventional treatment of the renal artery aneurysm rupture. (A) Selective angiography of the right renal artery showing a 2.9 cm aneurysm of the superior segmental branch of the renal artery. (B) Post-embolization angiography showing complete occlusion of the aneurysmal sac.

다. 그 외 신체 검진에서 특이 소견은 보이지 않았다. 말초혈액 검사에서는 혈색소 8.2 g/dL, 적혈구 용적률 23.9%, 백혈구 25,870/mm<sup>3</sup>, 혈소판 229,000/mm<sup>3</sup>였다. 혈액 응고 검사에서 prothrombin time international normalized ratio 1.10, activated partial thromboplastin time은 26.8초였다. 혈청 생화학 검사에서 혈액 요소질소 13.1 mg/dL, 크레아티닌 0.78 mg/dL, 나트륨 140 mEq/L, 칼륨 4.8 mEq/L, 염소 110 mEq/L, 아스파르테이트아미노전이효소 15 U/L, 알라닌아미노전이효소 8 U/L, 젖산탈수효소 246 U/L (참고치, 135-214)로 측정되었다. 총단백질 3.8 g/dL, 알부민 2.3 g/dL로 감소되어 있었다. 소변 검사에서는 비중 1.024, 산도 5.0 혈뇨 2+, 단백뇨 1+로 검출되었다. 흉부 X선 촬영에서 양측 흉수가 관찰되었고 추가로 시행한 심초음파 검사상 특이 소견은 없었다. 조영제 복부 전산화단층촬영 (computed tomography, CT)에서 우측 신장 주변으로 대량의 출혈이 확인되었으며 난소, 자궁 등의 산과적 장기에 출혈 소견은 보이지 않았다. 양측 신동맥에서 주상단선(string of beads)이 관찰되어 FMD가 확인되었다. 또한 우측 신동맥의

superior segmental artery에 2.9 cm 크기의 동맥류와 동맥류의 인접 부위에 조영제의 혈관외 유출이 확인되었다(Fig. 1).

환자는 대량 출혈로 저혈압성 쇼크 상태이고 CT 검사에서 신동맥의 일부 분지(superior segmental artery)에서 파열이 확인되어 외과적 수술보다는 신동맥 색전술 치료가 더 신속하게 접근할 수 있고 신동맥의 일부 분지에 대한 선택적 시술이 가능하다고 판단되어 곧바로 신동맥조영술을 통한 색전술을 시행하기로 하였다. 신동맥조영술에서 우측 신동맥에 주상단선과 동맥류 위치를 확인하고(Fig. 2), 파열된 우측 신동맥의 superior segmental artery의 근위부에 n-butyl cyanoacrylate와 lipiodol을 1:4로 혼합한 혼합제를 주입하고 금속코일을 이용하여 색전술을 시행하였다(Fig. 2). 색전술 시행 후 파열된 신동맥의 혈류가 완전 차단되어 더 이상 출혈은 보이지 않았다.

응급실 내원 후 출혈에 의한 저혈압성 쇼크와 빈혈, 범발성 혈관내응고증이 합병되어 혈소판 감소 및 프로트롬빈, 활성화 부분 트롬보플라스틴이 연장되어 총 적혈구 11 pints와 신선냉

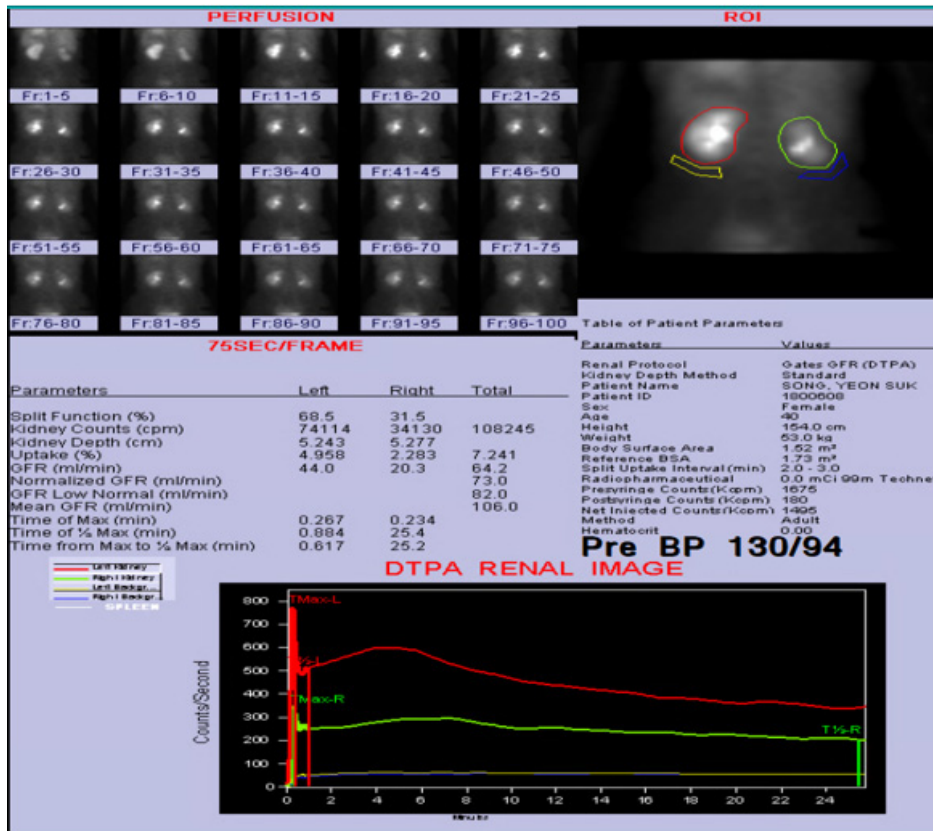


Figure 3. Tc-99m DTPA image showing estimated GFR of 44.0 mL/min/1.73 m<sup>2</sup> for the left kidney and 20.3 mL/min/1.73 m<sup>2</sup> for the right kidney. DTPA, diethylenetriaminepentacetate; GFR, glomerular filtration rate; ROI, region of interest; BP, blood pressure.

동혈장 8 pints, 혈소판 8 pints가 각각 수혈되었다. 또한 총 수액 3,000 mL가 투여되었다. 이후 환자는 소변량 200 mL/day로 피뇨를 보이면서 크레아티닌 0.78 mg/dL에서 크레아티닌 1.83 mg/dL로 증가하고 흉부 X선 촬영에서 양측 늑막액이 발생하여 지속성신대체술을 시행하였다. 혈압이 안정되면서 색전술 시행 2일째 혈액 투석으로 전환하였으며, 색전술 시행 3일째 크레아티닌 5.69 mg/dL로 증가하였으나 소변량이 증가하여 혈액 투석을 중단하였다. 내원 당시 알부민 2.3 g/dL였으나 입원 3일 후 3.4 g/dL로 호전되고 단백뇨 음전 되었다. 입원 14병일에 복부 통증 등의 임상 증세가 호전되고 신부전증 소견도 서서히 호전되어 퇴원하였다. 환자 퇴원 전 혈압 150/90 mmHg로 상승하여 nifedipine 30 mg을 하루 1회 추가하였고 현재 nifedipine 30 mg을 하루 1회 복용하면서 혈압 120/80 mmHg로 조절되었으며 퇴원 후 53병일에 크레아티닌 0.86 mg/dL로 신기능은 완전히 호전되었다. 외래에서 시행한 Tc-99m diethylenetriaminepentacetate (DTPA) 신장스캔 검사에서 우측 신장의 관류는 감소된 상태로 glomerular filtration rate는 좌측 44.0 mL/min/1.73 m<sup>2</sup>, 우측 20.3 mL/min/1.73 m<sup>2</sup>로 우측 신동맥의 superior segmental artery 파열에 대한 선별적 색전술 치료로 그 외 부위의 신장기능은 부분적으로 유지하고 있음을 확인하였다(Fig. 3).

## 고 찰

임산부에서의 후복막 출혈의 원인에는 외상, 열상, 혈관의 동맥류, 수술 후 합병증, 신장의 암종, 신낭종 등의 원인이 있다[4]. 임산부에서의 후복막 출혈의 생리학적, 유전적 원인은 명확하게 밝혀져 있지 않으나 임신 기간 중 심박출량의 증가, 혈류량 증가, 혈압 상승, 출산 시 스트레스에 의한 스테로이드 호르몬의 증가로 혈관이 상대적으로 취약해지고 이로 인해 후복막 출혈의 발생 가능성이 증가한다고 여겨진다[4]. 임신 기간과 출산 후 산욕기 여성에서 신동맥 파열은 드물지만 주로 임신 말기에 보고되고 있으며, 이 중 산욕기 여성에서 보고된 사례는 드물다고 알려져 있다[3]. 임신 중 신동맥류의 파열은 임신 기간 중 총 혈류량 증가, 신동맥으로의 혈류량과 혈압 증가, 복압의 증가, 임신 후기 자궁의 크기 증가에 따른 대동맥과 우측 신동맥의 눌림, 호르몬에 의한 혈관의 구조적 취약성에 의해 발생하는 것으로 여겨지고 있다[5]. 신동맥의 파열은 초기에 발견하여 치료하지 않으면 사망에 이를 수 있는

응급 질환이다[3].

본 증례는 임신 전 고혈압 등의 기저 질환이 없는 임산부에서 출산 후 FMD에 의한 신동맥 파열이 발생하였고 색전술 시행 후 호전된 환자의 국내 첫 보고이다. 환자는 출산 후 2일째 발생한 갑작스러운 복통과 질 출혈과 빈혈, 그리고 저혈압성 쇼크로 처음에는 산과적 합병증으로 인한 출혈이 의심되었다. 산부인과적인 내진과 초음파 결과 수술 부위의 출혈 소견은 없어 곧바로 시행한 복부 CT에서 양측 신동맥의 FMD와 우측 신동맥의 동맥류에 의한 파열이 확인되어 곧바로 신동맥 색전술을 시행하여 성공적으로 치료하였다. 기저 질환이 없는 여성에서 FMD에 의한 신동맥의 파열이 발생하여 색전술을 시행한 보고는 해외에서 보고된 사례가 있으나 기저 질환이 없는 여성에서 제왕절개술 후 FMD에 의한 신동맥 파열이 발생한 증례는 본 증례가 처음이다.

본 환자의 신부전증은 과거 신기능에 대한 기록은 없었으나 신동맥 파열에 대한 치료 후 신장기능이 정상으로 회복되었기 때문에 급성 신부전증에 합당하다. 본 환자에서 발생한 급성 신부전 발생의 가능한 원인으로는 첫째, 동맥류파열에 의한 혈류량 저하에 의한 신전성 질소혈증, 둘째, 복부 CT와 색전술 시에 사용한 요오드조영제(250 mL)에 의한 신독성, 마지막으로 색전술 치료에 의한 우측 신장 일부의 영구적 경색증이 복합적으로 작용하였을 것으로 생각된다. 본 증례에서 색전술 시행 후 신장기능이 회복된 상태에서 시행한 DTPA scan에서 색전술 부위인 우측 신동맥의 superior segmental artery 외 나머지 분지동맥이 혈액을 공급하는 부분에서 신기능이 보존되어 있음을 확인한 바 있다. 그러므로 본 환자에서 요오드조영제 사용에 의한 신독성에도 불구하고 선택적 일부 분지동맥 색전술은 신기능 회복에 도움이 되었을 것으로 사료된다. 신동맥의 동맥류를 유발할 수 있는 혈관염에는 거대세포 동맥염, 타카야수동맥염, 가와사키병, 결절다발동맥염이 있으나 환자의 임상 양상과 영상학적인 특징과 맞지 않다고 생각하여 배제하였다[6].

결론적으로 고혈압이나 FMD의 과거력이 없다 하더라도 출산 전후 임산부에서 빈혈을 동반한 급성 복통과 저혈압성 쇼크 발생 시 원인 질환으로 산과적 합병증에 의한 경우가 아니라면 복부 CT를 초기에 시행하여 신동맥 파열을 확인해야 하며 확진되면 외과적 수술에 앞서 신동맥 색전술을 우선 고려해야 한다.

## 요 약

신동맥의 섬유근이형성증은 비죽상경화성, 비염증성 혈관 질환으로 혈관의 협착, 동맥류, 박리, 폐색이 발생할 수 있다. 저저들은 임신 전 기저 질환이 없는 40세 임신부가 제왕절개술 후 2병일째 섬유근이형성증에 의한 신동맥 동맥류의 파열이 발생한 드문 증례를 발견하여 보고하고자 한다. 환자는 갑자기 발생한 복통으로 병원에 내원하여 시행한 복부 전산화단층촬영에서 우측 신동맥의 동맥류와 인접부위 혈관의 파열을 확인하였고, 신속한 신동맥조영술을 통한 색전술을 시행하였다. 신동맥색전술 후 일시적으로 지속성신대체술을 시행하였고 신기능은 완전히 호전되었다.

**중심 단어:** 섬유근육형성이상, 신동맥류, 색전술

## REFERENCES

1. Narula N, Kadian-Dodov D, Olin JW. Fibromuscular dysplasia: contemporary concepts and future directions. *Prog Cardiovasc Dis* 2018;60:580-585.
2. Mousa AY, Gill G. Renal fibromuscular dysplasia. *Semin Vasc Surg* 2013;26:213-218.
3. Nakamura R, Koyama S, Maeda M, et al. Rupture of renal artery aneurysm during the early post-partum period. *J Obstet Gynaecol Res* 2013;39:1476-1479.
4. Rafi J, Muppala H. Retroperitoneal haematomas in obstetrics: literature review. *Arch Gynecol Obstet* 2010;281:435-441.
5. Augustin G, Kulis T, Kello N, Ivkovic V. Ruptured renal artery aneurysm in pregnancy and puerperium: literature review of 53 cases. *Arch Gynecol Obstet* 2019;299:923-931.
6. Maritati F, Iannuzzella F, Pavia MP, Pasquali S, Vaglio A. Kidney involvement in medium- and large-vessel vasculitis. *J Nephrol* 2016;29:495-505.