



Inferior Mesenteric Artery Embolization with N-Butyl Cyanoacrylate for Life-Threatening Postpartum Hemorrhage: A Report of Two Cases and Literature Review

치명적 산후출혈에서 N-Butyl Cyanoacrylate를 이용한 하장간막동맥 색전술: 두 개의 증례 보고와 문헌 고찰

Hae Won Yoo, MD , Min Jeong Choi, MD* , Bong Man Kim, MD

Department of Radiology, Dankook University Hospital, Cheonan, Korea

The inferior mesenteric artery is a rare source of postpartum hemorrhage. We report two cases of primary postpartum hemorrhage that originated from the inferior mesenteric artery after vaginal delivery. Both patients showed signs of hypovolemic shock, and disseminated intravascular coagulation was suspected. The bleeding continued even after embolization of the uterine artery, a typical source of postpartum hemorrhage. Inferior mesenteric arteriography confirmed contrast extravasation from the superior rectal artery, and selective embolization was performed using N-butyl cyanoacrylate. This report highlights that the inferior mesenteric artery can be a source of bleeding in patients with intractable and persistent postpartum hemorrhage due to birth canal injury.

Index terms Postpartum Hemorrhage; Mesenteric Artery, Inferior; Embolization, Therapeutic

서론

조절되지 않는 산후출혈에서 경동맥 색전술(transarterial embolization)은 매우 중요한 치료 전략이다. 출혈 동맥을 조기에 찾아 신속하게 지혈을 해줌으로써 수혈의 양을 줄일 수

Received October 23, 2020
Revised November 15, 2020
Accepted November 22, 2020

*Corresponding author

Min Jeong Choi, MD
Department of Radiology,
Dankook University Hospital,
119 Dandae-ro, Dongnam-gu,
Cheonan 31116, Korea.

Tel 82-41-550-6921
Fax 82-41-550-6921
E-mail babiyong@hanmail.net

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

ORCID iDs

Hae Won Yoo
<https://orcid.org/0000-0003-3415-6604>
Min Jeong Choi
<https://orcid.org/0000-0001-8941-3482>
Bong Man Kim
<https://orcid.org/0000-0003-3720-9361>

있고, 자궁과 생식능력을 보존할 수 있다는 장점이 있다(1-4). 그러나 출혈 혈관에 대한 평가가 제대로 시행되지 못할 경우, 효과적인 색전술을 기대하기 어렵고 대량출혈을 초래할 수 있다(3, 5).

저자들은 자궁동맥 색전술 후에도 지속적인 산후출혈이 있었던 환자에서 하장간막동맥(inferior mesenteric artery; 이하 IMA)으로부터 조영제의 혈관외누출(extravasation)을 확인하고 색전술을 시행하였던 2개의 증례를 보고하고자 한다. 두 환자 모두 산도 손상(birth canal injury)에 의한 산후출혈이었고, 저혈량성 쇼크와 파종성혈관내응고(disseminated intravascular coagulation)를 동반하고 있었다.

증례 보고

증례 1

33세 산모(gravida 1, para 0)가 임신 39주 1일로 외부 병원에서 1시간 전 진공흡입(vacuum)을 이용한 질식분만 후, 질출혈이 멈추지 않고 청색증 및 호흡곤란을 보여 본원 응급실로 내원하였다. 내원 당시 혈압 90/60 mm Hg, 심박수 분당 138회, 호흡수 분당 22회였다. 초기 헤모글로빈(hemoglobin; 이하 Hb)은 7.4 g/dL, 헤마토크릿(hematocrit; 이하 HCT)은 23%로 감소되어 있었다. 혈소판(platelets; 이하 PLT)은 $48 \times 10^3/\mu\text{L}$ 로 감소되어 있었고, 트롬빈시간(prothrombin time; 이하 PT) 39.6초 (international normalized ratio; 이하 INR 3.42), 활성화부분트롬보플라스틴시간(activated partial thromboplastin time; 이하 aPTT) 92.1초로 응고시간이 연장되어 으면서, D-dimer는 69999 ng/mL로 측정되어 파종성혈관내응고(disseminated intravascular coagulation)가 의심되었다. 혈중 유산(lactate) 수치는 7 mmol/L로 증가되어, 혈액량 감소에 의한 고유산증도 동반하고 있었다. 산모의 자궁 저부는 단단하게 촉지되었고, 질경 검사에서 우측 산도 열상이 확인되었다.

수액요법 및 수혈(농축적혈구 8 units, 신선동결혈장 9 units, 혈소판 8 units)을 지속적으로 시행하면서, 색전술이 의뢰되었다. 골반 동맥에 대한 혈관조영술을 시행하였고, 현성 출혈을 시사하는 조영제의 혈관외누출 소견은 보이지 않았다. 양측 자궁동맥의 비대(hypertrophy)가 있었고, 젤폼(Cutanplast; Mascia Brunelli, Milano, Italy) slurry를 이용하여 색전술을 시행하였다. 그러나 산모는 지속적인 질출혈을 보였고, 우측 내장골동맥(internal iliac artery)의 전방 분지(anterior division) 및 우측 원인대동맥(round ligament artery)을 젤폼 입자로 색전술을 시행하였다. 이후에도 질출혈은 지속되어 복부대동맥 혈관조영술을 시행하였고, IMA의 종말 분지인 상직장동맥(superior rectal artery)의 우측 분지에서 조영제의 혈관외누출을 확인하였다(Fig. 1). 5-French (이하 F) Cobra 카테터(C1, Cook, Bloomington, IN, USA)를 통해 동축성 기법(coaxial technique)으로 2.2-F 미세카테터(Progreat; Terumo, Tokyo, Japan)를 삽입한 후 해당 혈관을 초선택하여, N-butyl-cyanoacrylate (이하 NBCA; Histoacryl, B Barun, Melsungen, Germany)와 iodized oil (Lipiodol; Guerbet, Paris, France) 혼합액(1:2)으로 색전하였다. 시술 후 질출혈은 현저히 감소하였고, 자궁경부 봉합술을 추가적으로 시행한 후 시술 3일째 퇴원하였다. 이후 경과 관찰에서 재출혈 혹은 색전술과 관련된 합병증은 발생하지 않았다.

Fig. 1. A 33-year-old female with postpartum hemorrhage after vacuum-assisted vaginal delivery.

A. The aortogram taken after embolization of both uterine arteries, right internal iliac artery, and right round ligament artery shows contrast extravasation (arrow) on the right side of the birth canal.

B. Selective angiogram of the inferior mesenteric artery shows contrast extravasation (arrows) from the right branch of the superior rectal artery, which was embolized with a mixture of N-butyl cyanoacrylate and iodized oil (not shown).



증례 2

27세 산모(gravida 0, para 0)가 39주 1일로 외부 병원에서 5시간 전 유도분만 후 질출혈이 지속되어 본원 응급실로 내원하였다. 질 열상(vaginal laceration)에 의한 질출혈로 봉합술을 시행하였고, 거즈 패킹, 풍선 적용(Bakri balloon tamponade)에도 불구하고 출혈은 조절되지 않았다. 내원 당시 혈압 87/40 mm Hg, 심박수 분당 118회, 호흡수 분당 22회였다. 초기 검사실 수치는 Hb 6.9 g/dL, HCT 15.5%, PLT $72 \times 10^3/\mu\text{L}$ 로 감소되어 있었고, PT 20.5초 (INR 1.8), aPTT 57.4초로 응고시간이 연장되어 있었으며, D-dimer는 8802 ng/mL로 측정되었다. 유산 수치는 1.4 mmol/L로 정상이었다. 저혈량성 쇼크가 있으면서 파종성혈관내응고가 의심되는 상태였다. 수액 투여와 함께 대량 수혈(농축적혈구 10 units; 신선동결혈장 8 units, 혈소판 8 units)이 진행되었다. 산모의 자궁 저부는 단단하게 촉지되었다.

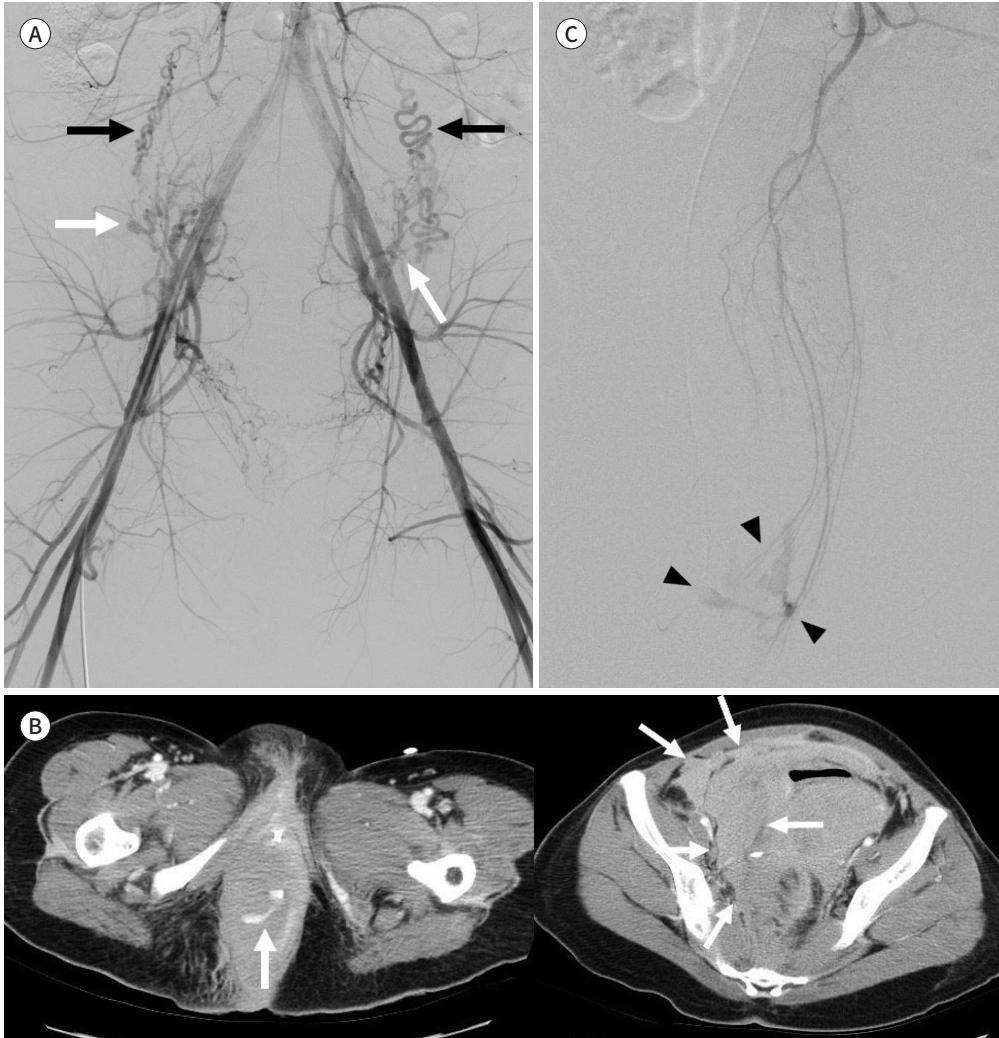
색전술이 의뢰되어 시행한 골반 동맥 혈관조영술에서 조영제의 혈관외누출 소견 없이 양측 자궁동맥의 비대 소견만 있었다(Fig. 2A). 젤폼 slurry를 이용하여 양측 자궁동맥 색전술 시행 후 시술을 종료하였다. 이후 산모는 질출혈은 감소하였으나 항문 주위와 회음부의 극심한 통증을 호소하였다. 또한 추가적으로 농축 적혈구 5 units를 투여하였음에도 불구하고 Hb이 8.6 g/dL로 측정되어 첫 색전술 후 9시간째 복부 CT를 시행하였다. 우측 회음부에 조영제의 혈관외누출 및 혈종이 있었고, 혈종은 골반내 복막의 공간(intrapelvic extraperitoneal space)으로 파급을 보이고 있었다(Fig. 2B). 이에 재색전술이 의뢰되었다. 골반 동맥에 대한 혈관조영술에서는 여전히 현성 출혈

Fig. 2. A 27-year-old female with postpartum hemorrhage due to vaginal laceration.

A. The initial pelvic arteriogram shows hypertrophy of both uterine arteries (white arrows) without contrast extravasation. Bilateral uterine artery embolization was performed using gelatin sponge slurry (not shown). Both ovarian arteries (black arrows) are also seen and were filled with embolic materials through the anastomoses (not shown).

B. CT image taken 9 h after the first transarterial embolization shows contrast extravasation (arrow) with hematoma in the right paravaginal and perineal areas (left image). The hematoma (arrows) extends into the intrapelvic extraperitoneal space (right image).

C. An inferior mesenteric arteriogram shows contrast extravasation (arrowheads) from the right branch of the superior rectal artery. Selective embolization of the culprit branch was performed using a mixture of N-butyl cyanoacrylate and iodized oil (not shown).



을 시사하는 소견이 없었다. 5F-Cobra 카테터(Cook)와 1.9-F 미세카테터(Asahi Masters Parkway Soft; Asahi Intecc, Pathum Thani, Thailand)를 이용하여 시행한 IMA 혈관조영술에서 IMA의 종말 분지인 상직장동맥으로부터 조영제의 혈관외누출이 있었고(Fig. 2C), 출혈 혈관을 초선택한 후 NBCA (Histoacryl)와 iodized oil (Lipiodol) 혼합액(1:3)으로 색전하였다. 환자는 시술 후 3일째 퇴원하였고, 경과 관찰에서 색전술과 관련된 합병증은 발생하지 않았다.

고찰

산후출혈에서 경동맥 색전술은 90% 이상의 높은 성공률을 보이지만, 일부 환자에서는 지속적인 출혈로 드물게 자궁적출술, 모성사망으로 이어질 수 있다(3-5). 색전술의 실패와 관련된 임상적 인자로는 응고장애(coagulopathy), 파종성혈관내응고, 대량수혈 등이 알려져 있다(3, 6). 대량출혈은 대량수혈로 이어지고, 혈액의 희석과 더불어 혈소판 감소, 응고인자의 소모를 유발하기 때문에 응고장애를 유발할 수 있으며, 이로 인하여 효과적인 색전술에 어려움이 따를 수 있다. 한편 저혈량성 쇼크에 의한 불안정한 생체 징후로 인하여 혈관 수축이 있을 경우, 출혈 혈관에 대한 선택적 혈관조영술을 제대로 시행하지 않으면 위음성으로 보일 수 있고, 색전술 후 재개통에 의한 재출혈이 있을 수 있다(3). 때문에 산후출혈의 원인을 파악하고, 가능성 있는 출혈 혈관을 숙지하여 정확하게 평가한 후 적절한 색전 물질을 선택하여 신속하게 색전술을 시행하는 것이 환자의 예후에 매우 중요하다.

산후출혈의 가장 흔한 원인은 자궁무력증(uterine atony)이다. 이 경우 조영제의 혈관외누출 없이 양측 자궁동맥의 비대(hypertrophy) 및 충혈(hyperemia)로만 보일 수 있으며, 이러한 경우에도 자궁동맥 색전술을 시행해야 한다(3, 5, 6). 자궁동맥과 문합을 이루고 있는 난소동맥, 원인대동맥, 내장골동맥의 색전이 추가적으로 필요한 경우도 있다. 산도 손상에 의한 산후출혈인 경우에는 조영제의 혈관외누출이나 가성동맥류와 같은 현성 출혈을 시사하는 소견을 보이는 경우가 많다(5, 6). 출혈 동맥으로는 질동맥(vaginal artery)이 가장 흔하고, 그다음으로 자궁동맥에서 분지하는 cervicovaginal branch, 내음부동맥(internal pudendal artery)이 흔하다(6). 드물게 내장골동맥의 분지와 외장골동맥에서 분지하는 외음부동맥(external pudendal artery)이 출혈 혈관일 수 있다(5, 6). Lee 등(6)은 산도 열상과 관련된 산후출혈에서 색전술을 시행했던 환자들을 분석한 결과, 현성 출혈을 보인 혈관의 5%(4/74)가 IMA인 것으로 보고하였다. 산후출혈의 색전술에서 술기와 관련된 실패 요인 중에는 출혈 혈관을 제대로 진단하지 못하여 효과적인 지혈이 이루어지지 못하는 경우가 있을 수 있다. 이런 측면에서 IMA로부터의 출혈 가능성을 고려하는 것은 매우 중요하다.

이전 보고에 의하면 산후출혈에서 IMA가 원인 동맥인 경우, 질동맥, 자궁동맥의 cervicovaginal branch, 내음부 동맥에도 현성 출혈을 동반한 경우가 드물지 않다(1, 2, 7). 본 증례에서는 두 환자 모두 IMA에서만 조영제의 혈관외누출이 있었고, 산후출혈의 흔한 출혈 동맥인 장골 동맥에서 분지하는 혈관에서는 현성 출혈을 시사하는 소견이 확인되지 않았다.

IMA의 종말 분지인 상직장동맥은 직장의 위 2/3 부위를 담당하며 하직장동맥(inferior rectal artery)과 문합을 형성한다. 하직장동맥은 내음부동맥에서 분지하며 직장의 하부와 항문, 회음부에 동맥혈을 공급한다. 중직장동맥(middle rectal artery)은 내장골동맥에서 분지하며 직경이 매우 작거나 없을 수도 있고, 여성에서는 질동맥에서 분지하기도 한다(8). 이들 직장동맥들은 앞서 명시한 산도를 담당하는 동맥 분지와 해부학적으로 근접하여 위치해 있고, 동일한 혈관에서 분지하기도 하며, 서로 문합을 형성하고 있기 때문에 산도 손상에 의한 산후출혈에서 잠정적 출혈 동맥일 수 있다(Supplementary Fig.1 in the online-only Data Supplement).

산후출혈로 IMA 색전술을 시행한 8명의 환자를 후향적으로 분석한 결과, 모든 산모가 질식 분만하였고, 자궁경부 혹은 질 열상과 같은 산도(birth canal) 손상이 있었다(1). 본 증례에서도 두 환자 모두 질식 분만 후 산도 손상이 출혈의 원인이었고, 자궁무력증은 없었다. 산후출혈로 색전술을 시행하기 전에 환자의 분만 방법과 산후출혈의 원인을 파악하는 것이 시술의 계획과 색전술 시행에 도움이 될 수 있겠다. 산도 손상에 의한 산후출혈인 경우, 자궁동맥과 내장골동맥 분지의 색전술 후에도 출혈이 지속된다면 대동맥조영술을 시행해보거나, IMA에 대한 선택적 혈관조영술을 고려해보아야 하겠다. 또한 복부 CT를 통해 현성 출혈의 여부와 위치를 파악하는 것도 도움이 될 수 있겠다.

한편 자궁적출술 후 출혈에서 IMA가 출혈 혈관이었던 증례(7), 잔류태반조직으로 인한 산과적 출혈에서 IMA로부터의 측부 혈류가 확인되었던 증례(9) 보고도 있었다.

산후출혈의 색전술에서는 젤폼 입자를 흔히 사용한다. 젤폼은 일시적 색전 물질로서 일정 시간이 지나면 흡수되는 성질이 있어 비교적 안전하다는 장점이 있으나 응고병증을 동반한 경우에는 효과적인 색전술이 어려울 수 있다. 이에 비해 NBCA는 혈액과 접촉했을 때 빠르게 중합반응(polymerization)을 일으키는 영구적 색전 물질로서 환자의 혈액응고 상태에 영향을 받지 않기 때문에 응고병증을 동반한 경우에도 효과적인 색전술을 기대할 수 있다(4, 5, 10). 산후출혈에서 IMA로부터 분지하는 출혈 혈관을 선택하여 색전한 이전 보고에 의하면 사용한 색전 물질은 젤폼 입자, NBCA, coil로 다양하였고, 재출혈 및 허혈과 관련된 합병증은 발생하지 않았다(1, 2, 6, 7, 9). 본 증례에서는 두 환자 모두 응고장애가 있었기 때문에 색전 물질로 NBCA를 선택하였고, 재출혈 없이 임상적으로 호전되었으며, 대장 및 직장에 색전술과 관련한 허혈성 합병증은 발생하지 않았다.

결론적으로, 산도 손상에 의한 산후출혈에서 골반 동맥의 혈관조영술상 조영제의 혈관외누출이 보이지 않고 전형적 출혈 혈관을 색전한 후에도 질출혈이 지속적으로 있을 때 IMA의 종말 분지인 상직장동맥으로부터의 출혈 가능성을 고려해 보는 것이 필요하겠다.

Supplementary Materials

The online-only Data Supplement is available with this article at <http://dx.doi.org/10.3348/jksr.2020.0182>.

Author Contributions

Conceptualization, C.M.J., K.B.M.; project administration, Y.H.W.; resources, C.M.J.; supervision, C.M.J.; visualization, Y.H.W.; writing—original draft, Y.H.W.; and writing—review & editing, all authors.

Conflicts of Interest

The authors have no potential conflicts of interest to disclose.

Funding

None

REFERENCES

1. Chen C, Chu HH, Shin JH, Li HL, Ko HK, Kim JW, et al. Inferior mesenteric artery embolization for persistent postpartum hemorrhage after sufficient bilateral iliac arteries embolization: safety and efficacy in eight patients. *Br J Radiol* 2019;92:20180896

2. Koganemaru M, Nonoshita M, Iwamoto R, Kuhara A, Nabeta M, Kusumoto M, et al. Endovascular management of intractable postpartum hemorrhage caused by vaginal laceration. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2016;39:1159-1164
3. Cheng HH, Tsang LL, Hsu TY, Kung CT, Ou CY, Chang CD, et al. Transcatheter arterial embolization as first-line rescue in intractable primary postpartum hemorrhage: assessment, outcome, and subsequent fertility. *J Formos Med Assoc* 2017;116:380-387
4. Kwon Y, So YH, Kim BJ, Kim SM, Choi YH, Moon MH. Uterine artery embolization in patients with postpartum hemorrhage: clinical efficacy and safety of treatment with N-butyl-2-cyanoacrylate. *J Korean Soc Radiol* 2019;80:88-97
5. Kim MD. *Uterine artery embolization*. In The Society of Interventional Radiology, ed. *Interventional radiology*. 2nd ed. Seoul: Ilchokak 2014:414-430
6. Lee SM, Shin JH, Shim JJ, Yoon KW, Cho YJ, Kim JW, et al. Postpartum haemorrhage due to genital tract injury after vaginal delivery: safety and efficacy of transcatheter arterial embolisation. *Eur Radiol* 2018;28:4800-4809
7. Kim CH, Lee SJ, Jeon GS, Kang SH, Kim HC. Embolization of inferior mesenteric artery for intractable intrapelvic and vaginal bleeding after hysterectomy. *J Minim Invasive Gynecol* 2016;23:1191-1194
8. Susan S. *Gray's anatomy: the anatomical basis of clinical practice*. 40th ed. London: Elsevier/Churchill Livingstone 2008:1154, 1281, 1289-1290
9. Goto Y, Kanno Y, Hayashi M, Mitsuzuka K, Sekiguchi T, Suzuki T, et al. Retained products of conception fed by the inferior mesenteric artery: a case report. *Tokai J Exp Clin Med* 2020;45:131-135
10. Yonemitsu T, Kawai N, Sato M, Tanihata H, Takasaka I, Nakai M, et al. Evaluation of transcatheter arterial embolization with gelatin sponge particles, microcoils, and n-butyl cyanoacrylate for acute arterial bleeding in a coagulopathic condition. *J Vasc Interv Radiol* 2009;20:1176-1187

치명적 산후출혈에서 N-Butyl Cyanoacrylate를 이용한 하장간막동맥 색전술: 두 개의 증례 보고와 문헌 고찰

유해원 · 최민정* · 김봉만

하장간막동맥은 산후출혈의 매우 드문 출혈 혈관이다. 저자들은 질분만 후 하장간막동맥에서 출혈이 있었던 일차성 산후출혈 두 개의 증례를 보고한다. 두 환자 모두 저혈량성 쇼크의 징후를 보이고 있었고, 파중성혈관내응고가 의심되는 상태였다. 산후출혈의 흔한 출혈 혈관인 자궁동맥을 색전한 후에도 출혈은 지속되었다. 하장간막동맥 혈관조영술에서 상직장동맥으로부터 조영제의 혈관외누출이 확인되어 N-butyl cyanoacrylate를 이용한 선택적 색전술을 시행하였다. 이 증례를 통해 산도 손상에 의한 산후출혈이 조절되지 않고 지속될 때 하장간막동맥이 출혈 동맥일 수 있다는 점을 강조하고자 한다.

단국대학교병원 영상의학과