

경직형 사지마비 발생에 영향을 미치는 위험요인에 대한 환자 대조군 연구

김 경 미
가톨릭대학교 대학원 보건학과

Abstract

Case-Control Study of Risk Factors Affecting Cerebral Palsy With Spastic Quadriplegia

Kim, Kyeong-Mi, Ph.D., K.O.T.R.
Dept. of Public Health, Graduate School, Catholic University

The purpose of this study was to investigate the relation between components of population, maternal health, need for health care, maternal lifestyle and environment from a conceptual model for cerebral palsy, and the occurrence of cerebral palsy with spastic quadriplegic.

This study was a case-control design. The subjects consisted of 53 children with quadriplegic cerebral palsy as a case who were receiving treatment after a diagnosis for cerebral palsy at 3 university hospitals and 3 rehabilitation facilities, and 186 children as a control who were visiting well baby clinics and pediatric departments after screening at the same hospitals in Seoul. The data were collected by a structured questionnaire survey from October, 1998 to February, 1999. The odds ratios of risk factor was produced by χ^2 and simple logistic analysis. The unconditional logistic analysis was done by modeling the data, after adjusting for gestational age.

Statistically associated with an increase the risks for spastic quadriplegia were asphyxia(OR=221.89, 95% CI 15.8-999.0) and maternal history of admission during the pregnancy(OR=10.55, 95% CI 2.2-50.4).

The result suggested that the improvement of obstetric and neonatal care is necessary to prevent cerebral palsy with spastic quadriplegia.

Key Words : Cerebral palsy, Spastic quadriplegia, Risk factors, Case-control study

I. 서론

뇌성마비는 미성숙한 뇌의 병변이나 발달의 결함으로 인한 운동 및 자세의 장애로서 비진행성 만성 장애를 말하며(Bax, 1964), 출생 초기부터 증상이 나타나기 시작하여 그 장애가 일생을 지속한다는 점에서 사회적인 문제가 되고 있다. 뇌성마비 발생률은 국가, 진단기준, 연령, 연구지의 의학적 수준 등에 따라 차이가 있으나(Mutch 등, 1992) 그 범위는 출생아 1000 명당 0.6 - 5.9 명으로 보고되고 있다(Hagberg, 1978; Pharoah, 1981).

1862년 Little이 뇌성마비의 질환을 보고하면서 뇌성마비의 주된 원인이 주로 분만시의 뇌손상이라고 주장한 이래 의학계는 분만손상을 감소시킴으로써 뇌성마비의 발생을 예방하고자 하였다. 그러나 의학의 발달로 뇌성마비의 발생을 예방할 수 있을 것으로 믿었으나 뇌성마비는 점차적으로 증가하고 있다(Emond 등, 1989; Hagberg 등, 1989; Pharoah 등, 1990). 그 이유를 Hagberg 등(1989)은 주산기학의 발달로 과거에는 생존할 수 없었던 저출생 체중아의 생존이 증가하기 때문이라고 하였다. 또한 의료관리의 개선에도 불구하고 뇌성마비의 수가 증가하는데, 이것은 뇌성마비의 위험이 출산관리에 국한되어 있지 않음을 의미한다. Topp 등(1997)과 Allen(1993)은 생물학적 요인 또는 환경적 요인들이 뇌성마비의 위험을 증가시킬 수 있으며, 태아에게 불리한 출산전 상태들이 조산과 뇌손상을 가져올 수 있으며, 출산시에도 태아에게 더 많은 영향을 끼친다는 출산전 위험요인의 가능성을 설명하였다.

뇌성마비 발생의 과정은 복잡하고 다양한 요인들

이 상호작용 한다(Polivka 등, 1993). 뇌성마비의 병인을 알아보기 위한 연구들은 시간적 흐름에 따라 출산전, 출산시, 그리고 출산후 요인으로 나누어 분석하였고(O'Reilly와 Walentynowicz, 1981; Ellenberg과 Nelson, 1986; Spinillo 등, 1997), 그 밖의 가능한 요인으로 태아의 출생시 상태와 특성에 관한 요인, 모성요인, 사회경제적 요인, 환경적 요인 등이 포함되었다(Murphy 등, 1995; Petridou 등, 1996). 뇌성마비 발생에 영향을 미치는 요인의 연구에는 발생과 관련된 가능한 위험요인들을 포함시키는 것이 의미가 있다. Blum(1981)은 건강을 인구와 의료관리, 생활형태, 환경의 네 가지 요소들이 기초가 되어 발전된 것으로 개념화하였고, 이러한 개념에서 일부를 변형하여 뇌성마비의 발달에 대한 생태학적 모델(ecologic model for development of cerebral palsy)을 제시하였다. Polivka 등(1993)은 Blum(1981)의 변형된 모델과 뇌성마비의 원인에 관한 문헌연구를 통하여 인구 요소, 부모의 건강 요소, 의료관리의 필요 요소, 모성의 생활형태 요소 그리고 부모의 환경폭로 요소로 모델을 변형하여 사용하였다.

뇌성마비의 위험요인으로서는 조산(O'Reilly와 Walentynowicz, 1981), 출생시 저체중(Ellenberg과 Nelson, 1985; Torfs 등, 1990; Cummins 등, 1993), 출생시 가사(Nelson과 Grether, 1998), 그리고 분만시 합병증(Ellenberg과 Nelson, 1986) 등이 보고되었다. Sinha 등(1997)은 유전적 또는 사회적 영향에 의해 아시아계가 비 아시아계 보다 뇌성마비의 비율이 높고, 유형별 분포에도 차이가 있음을 제시하였다. 인종 및 국가에 따라 뇌성마비 발생에 대한 위험요

인 또한 차이가 있을 것이다. 우리 나라에서도 문한구(1993)는 만삭아를 대상으로 뇌성마비의 위험요인들을 분석하였고, 박창일 등(1997)은 뇌성마비의 조기진단을 위한 이학적 평가항목의 개발 연구에서 뇌성마비의 위험요인을 제시하였다. 그러나 이들 연구는 한 병원을 대상으로 연구하여 일반화의 어려움이 있으며, 표본 수가 적고, 조사항목이 일부 요인에만 국한된 제한점이 있었다.

뇌성마비의 유형은 경직형 사지마비, 경직형 하지마비, 경직형 편마비, 그리고 추체외로성 뇌성마비로 분류된다. 뇌성마비의 임상적 유형들은 각기 다른 질병과정을 나타내며, 또한 유형의 시간적 관점, 출생시 체중분포, 출생과 관련된 문제들에서도 차이를 보인다(Hagberg 등, 1975a; Hagberg 등, 1975b). 뇌성마비의 유형 중 경직형 사지마비는 특히 신체, 인지, 지각, 학습 등의 복합장애를 가지며, 치료를 받더라도 치료기간이 길다. 그러므로 경직형 사지마비의 위험요인을 살펴보는 것은 의미가 있다.

이 연구는 경직형 사지마비와 정상아를 대상으로 경직형 사지마비의 발생과 관련된 위험요인을 알아 보기 위하여 Polivka 등(1993)의 개념적 모델과 문헌연구를 토대로 환자-대조군 연구를 실시하였다.

II. 연구 방법

1. 연구 대상 및 자료 수집

환자군은 경직성 사지마비로 진단 받고, 6개의 특정 의료기관에서 재활치료를 받고 있는 아동으로 1992년 3월 1일에서 1998년 5월 31일 사이에 출생한 아동으로 하였다. 연구대상 기관은 서울시에 위치하는 3개의 대학병원과 3개의 장애인 종합복지관으로 하였다. 지역적으로는 강북에 3기관, 강남에 3기관이 위치하며, 뇌성마비 아동들의 재활치료 프로그램을 가지고 있는 기관들로 하였다.

뇌성마비에 대한 정의는 Little Club of

London(Pharoah, 1981)에 의해 설정된 것을 사용하였다. 출생 후 사고나 감염으로 인한 경우와 점진적인 신경학적 질환을 가진 경우는 제외하였다.

면접조사는 치료를 목적으로 각 기관의 치료실을 방문한 당일 면접조사 하였다. 그 후 각 아동에 대한 의무기록을 조사하였다. 면접 조사한 56명 중 출생 후 사고에 의한 1명, 응답 기재가 불충분한 2명을 제외한 53명을 환자군으로 하였다.

대조군은 병원 대조군으로 대상 의료기관의 육아지도소 또는 소아과를 방문한 아동으로, 1992년 3월 1일에서 1998년 5월 31일 사이에 출생한 아동으로 하였다. 이 아동들에게 텐버발달판별검사를 실시한 후 정상으로 판별된 아동들 즉, 운동발달에 지연이 없는 아동들을 대상으로 하였다. 면접 조사한 194명 중 불충분하게 응답한 8명을 제외한 186명을 대조군으로 하였다. 대조군의 평균 출생시 체중은 3.29 ± 0.4 kg으로 한국 소아 발육 표준치(한국 소아과 학회, 1997)인 3.32 ± 0.4 kg과 차이가 없었다.

자료수집 방법은 연구에 동의한 환자군과 대조군의 어머니들을 대상으로 설문지를 사용하여 면접조사 하였다. 환자군의 어머니들은 아동을 치료하고 있는 치료사가, 대조군의 어머니들은 연구자가 면접조사 하였다. 면접조사 이전에 각 기관의 치료사들에게 연구의 목적과 연구대상, 설문내용, 그리고 면접방법에 관하여 교육하였다.

설문지에 대한 사전 조사는 내용을 예비 확정된 후 1998년 10월 19일부터 10월 23일까지 5일간 실시하였으며, 본 조사는 1998년 11월에서 1999년 2월까지 실시하였다.

2. 연구 도구

구조화된 설문지를 사용하였다. 설문 내용은 Polivka 등(1993)이 제시한 뇌성마비 발달에 대한 개념적 모형과 지금까지 연구되었던 문헌을 바탕으로 하였다. 설문지의 구성 내용은 아동인구 특성, 어

머니 건강관리 특성, 의료의 필요성, 어머니의 생활 유형, 환경에 관한 것이다. 환자군의 경우 의무기록 조사를 통하여 아동의 뇌성마비 진단시기 및 과거력에 관한 정보를 얻었다.

3. 분석 방법

자료의 분석은 수집된 자료를 부호화한 후, SAS(Statistical Analysis System)를 이용하여 두 단계에 걸쳐 분석하였다. 첫 번째 단계에서는 뇌성마비 발생과 단일하게 관련된 변수들을 알아보기 위하여 범주형 변수인 경우 chi-square(χ^2) 검정을 사용하였으며, 연속 변수인 경우 단순 로지스틱 회귀분석을 사용하였다. 단일변량분석을 한 후 독립 변수들간의 비차비(odds ratio)를 산출하여 상대위험도를 비교하였다. 연속 변수를 범주형 변수로 변환하기 위한 분기점(cut-off point)은 임상적인 의의를 고려하여 정하였다.

두 번째 단계에서는 뇌성마비 발생에 영향을 미치는 위험요인을 알아보기 위하여 다변량분석을 실시하였다. 단일변량분석에서 유의하였던 변수들을 각 영역별로 다변량 로지스틱 회귀분석을 사용하여 분석한 후 유의한 변수들을 마지막 모델에 포함시켰다.

III. 결 과

1. 아동인구의 특성별 비차비

환자군과 대조군의 아동인구 특성별 분포 및 비차비는 표 1과 같다.

경직형 사지마비에 이환 될 위험은 남아가 여아보다 2.11배(95% CI 1.12-4.00), 저 출생 체중아보다 23.75배(95% CI 8.53-67.56), 조산아가 만삭아 보다 32.29배(95% CI 10.41-100.0) 유의하게 높았다. 자궁내성장제한 정도에서 대조군의 95.7%는 출생시 체중이

2501g 이상과 재태연령이 37주에서 42주 사이에 포함되었으나, 환자군에서는 52.8% 만이 이 범주에 포함되어 유의한 차이가 있었다($p<0.05$).

2. 어머니의 건강관리 특성별 비차비

환자군과 대조군의 어머니 건강관리 특성별 분포 및 비차비는 표 2와 같다.

경직형 사지마비에 이환 될 위험은 어머니의 출산 시 연령이 35세 이상인 경우가 25세에서 34세까지와 비교하여 3.68배(95% CI 1.22-11.05) 유의하게 높았으며, 첫째 아이인 경우 결혼 후 임신까지의 기간이 37개월 이후인 경우가 13개월에서 36개월까지인 경우와 비교할 때 4.08배(95% CI 1.06-15.65) 유의하게 높았으며, 그리고 유산에 대한 예방방법으로 약을 사용한 경험의 유·무에는 유의한 차이가 없었으나 경구 복용약 또는 한약을 복용한 경우 보다 주사약의 사용으로 인한 위험이 3.74배(95% CI 1.54-9.08) 유의하게 높았다. 그러나 임신기간 중 칼슘, 철분, 비타민, 그리고 영양제 등의 약물을 복용한 경우는 경직형 사지마비에 이환될 위험이 0.53배(95% CI 0.28-0.99)로 경직형 사지마비 발생의 방어요인이었다.

3. 의료 필요성의 특성별 비차비

환자군과 대조군의 어머니에 관한 의료 필요성의 특성별 분포 및 비차비는 표 3과 같다.

어머니 요소에서 경직형 사지마비에 이환 될 위험은 임신중 하혈을 경험 한 경우가 그렇지 않은 경우보다 2.23배(95% CI 1.23-4.41) 유의하게 높았으며, 특히 임신 말기의 하혈 경험은 12.44배(95% CI 3.12-49.68)로 그 위험이 유의하게 높았다. 임신 기간 중 입원 경험이 있는 경우는 그렇지 않은 경우보다 12.42배(95% CI 4.79-32.17), 그리고 출산 방법에 있어 제왕절개 수술을 받은 경우가 자연분만을 한 경우보다 2.01배(95% CI 1.08-3.73)

표 1. 아동인구와 관련된 특성

Variable		Cases(n=53)	Control(n=186)	Odds Ratio(95%CI) or t
Gender	male	35(66.00)	89(47.8)	2.11(1.12,2.77)**
	female	18(33.9)	97(52.2)	1.0
Birth weight (g)				
	≤ 2500	21(36.6)	5(2.7)	23.75(8.53, 67.56)**
	2500<	32(60.4)	181(97.3)	1.0
Gestational age(wks)				
	≤36	22(41.5)	4(2.2)	32.29(10.41, 100.0)**
	37<	31(58.5)	182(97.8)	1.0
Twins	yes	3(5.7)	4(2.2)	2.73(0.59, 12.59)
	no	50(94.3)	182(97.8)	1.0
Small for gestational age				
	yes	1(1.9)	1(0.5)	3.55(0.21, 57.85)
	no	52(98.1)	185(99.5)	1.0
BW/GA(score 1-6)				
		3.6±1.7	4.9±0.4	† 2.50(1.22, 5.12)*

† : adjusted for birth weight, gestational age, and age of the child

* p<0.05 **p<0.01 () : %

로 경직형 사지마비의 발생 위험이 유의하게 높았다.

환자군과 대조군의 아동에 관한 의료 필요성의 특성별 분포 및 비차비는 표 4와 같다.

경직형 사지마비에 이환 될 유의한 아동의 위험요인은 인큐베이터 관리를 받은 경우(OR=37.59, 95% CI 13.34-106.21)이었으며, 인큐베이터 관리를 받게 된 이유로 호흡곤란을 가진 경우(OR=

140.09, 95% CI 17.86-1099.12)와 조산으로 인한 경우(OR=31.13, 95% CI 6.23-155.62)에서 경직형 사지마비의 발생 위험이 유의하게 높았다. 또한 출생시 울음지연이 있었던 경우(OR=19.35, 95% CI 7.20-52.02), 그리고 출생시 가사가 있었던 경우(OR=82.14, 95% CI 18.4-365.91) 경직형 사지마비에 이환 될 위험이 유의하게 높았다.

표 2. 어머니 건강관리와 관련된 특성

Variable	Cases(n=53)	Control(n=186)	Odds Ratio(95%CI)
Mother's age at delivery(yrs)			
<25	2(3.8)	17(9.1)	0.43(0.09, 1.94)
25-34	44(83.0)	162(87.1)	1.0
35<	7(13.2)	7(3.8)	3.68(1.22, 11.05)
Menstruation			
irregular	11(20.8)	35(18.8)	1.13(0.52, 2.41)
regular	42(79.2)	151(81.2)	1.0
Previous premature birth			
yes	4(16.0)	9(11.8)	1.41(0.39, 5.07)
no	21(84.0)	67(88.2)	1.0
Previous miscarriage			
yes	12(23.5)	26(14.1)	1.88(0.87, 4.05)
no	39(76.5)	159(85.9)	1.0
Birth order of index case			
2≤	26(49.1)	79(42.5)	1.30(0.70, 2.40)
1	27(50.9)	107(57.5)	1.0
Medical help to conceive			
yes	10(19.6)	18(9.7)	2.27(0.97, 5.30)
no	41(80.4)	168(90.3)	1.0
Weight gain in pregnancy(kg)			
≤10	27(50.9)	68(36.6)	1.78(0.95, 3.34)
11-20	24(45.2)	108(58.1)	1.0
20<	2(3.9)	10(5.3)	0.9(0.18, 4.37)

표 2. - Continued

Variable		Cases(n=53)	Control(n=186)	Odds Ratio(95%CI)
Time to first conception after marriage(month)				
	<13	14(51.9)	71(66.3)	0.92(0.32, 2.63)
	13-36	6(22.2)	28(26.2)	1.0
	36<	7(25.9)	8(7.5)	4.08(1.06, 15.65)*
Interpregnancy interval(month)				
	>9	4(15.4)	8(10.1)	1.61(0.44, 5.87)
	9≤	22(84.6)	47(89.9)	1.0
Threatened miscarriage medication				
	yes	12(23.1)	23(12.4)	2.12(0.97, 4.63)
	no	40(76.9)	163(87.6)	1.0
type	injection	11(91.7)	12(52.2)	3.74(1.54, 9.08)**
	others ¹⁾	1(8.3)	11(47.8)	0.37(0.05, 2.95)
Supplementary pregnancy ²⁾	while			
	yes	22(43.1)	105(59.0)	0.53(0.28, 0.99)*
	no	29(56.9)	73(41.0)	1.0
Previous disease				
	yes	3(5.8)	14(7.5)	0.75(0.20, 2.72)
	no	49(94.2)	172(92.5)	1.0

1) oral medications or herb

2) supplementary Fe. or Ca. or Vit. or nutrients

* p<0.05

** p<0.01

() : %

표 3. 의료 필요성과 관련된 어머니의 특성

Variable	Cases(n=53)	Control(n=186)	Odds Ratio(95%CI)
Bleeding			
yes	23(43.4)	46(24.7)	2.33(1.23, 4.41)**
no	30(56.6)	140(75.3)	1.0
1st trimester	12(54.6)	38(82.6)	1.47(0.69, 3.15)
2nd trimester	2(9.1)	5(10.9)	1.87(0.35, 10.08)
3rd trimester	8(36.3)	3(6.5)	12.44(3.12, 49.68)**
Prenatal care(wks)			
< 13	48(92.3)	155(85.2)	1.0
13≤	4(7.7)	27(14.8)	0.47(0.15, 1.43)
Disease while pregnancy			
yes	7(13.7)	14(7.5)	1.95(0.74, 5.13)
no	44(86.3)	172(92.5)	1.0
History of admission			
yes	17(32.7)	7(3.8)	12.42(4.79, 32.17)**
no	35(67.3)	179(96.2)	1.0
Mode of delivery			
cesarian	27(50.9)	63(33.9)	2.01(1.08, 3.73)*
vaginal	26(49.1)	122(65.6)	1.0
others ¹⁾	-	1(0.5)	-
Duration of labor (hrs)			
13+	4(7.5)	21(11.3)	0.64(0.21, 1.95)
-12	49(92.5)	165(88.7)	1.0

* p<0.05

**p<0.01

() : %

1) breech or forceps delivery

표 4. 의료 필요성과 관련된 아동의 특성

Variable	case(n=53)	Control(n=186)	Odds Ratio(95% CI)
Incubator treatment			
yes	28(54.9)	7(3.8)	37.59(13.34, 106.21)**
no	23(45.1)	179(96.2)	1.0
due to :			
respiratory distress	18(66.7)	1(20.0)	140.09(17.86, 1099.12)**
prematurity	8(29.6)	2(40.0)	31.13(6.23, 155.62)**
others ¹⁾	1(3.7)	2(40.0)	3.89(0.34, 44.62)
Length of incubator stay(day)			
M±SD	39.1±26.1	9.80±10.3	0.78(0.55, 1.11)
Delayed crying			
yes	20(39.2)	6(3.2)	19.35(7.20, 52.02)**
no	31(60.8)	180(96.8)	1.0
Birth asphyxia			
yes	25(47.2)	2(1.1)	82.14(18.47, 365.91)**
no	28(52.8)	184(98.9)	1.0
Jaundice			
yes	8(15.1)	18(9.7)	1.65(0.67, 4.06)
no	45(84.9)	168(90.3)	1.0
Place of delivery			
hospital	30(85.7)	112(85.5)	1.0
obstetric clinics	5(14.3)	19(14.5)	0.98(0.33, 2.84)

* p<0.05 ** p<0.01 (): %

1) jaundice or convulsions

표 5. 어머니 생활유형 및 환경과 관련된 특성

Variable	case(n=53)	Control(n=186)	Odds Ratio(95% CI)
Smoking in pregnancy			
yes	2(3.9)	4(2.2)	1.82(0.32, 10.22)
no	50(96.1)	182(97.8)	1.0
Alcohol use in pregnancy			
yes	47(92.2)	161(87.0)	1.75(0.57, 5.30)
no	22(9.6)	4(7.8)	1.0
Caffein use in pregnancy			
daily	1(1.9)	4(2.2)	1.09(0.58, 2.05)
rare/no	52(98.1)	181(97.8)	1.0
Level of eucation			
high school	30(56.6)	78(41.9)	1.80(0.97, 3.34)
university and over	23(43.4)	108(58.1)	1.0
Total monthly family income(10,000won)			
>150	22(41.5)	51(27.4)	1.33(0.67, 2.64)
150-249	23(43.4)	71(38.2)	1.0
250<	3(15.1)	64(34.4)	0.38(0.16, 0.92)*
Maternal occupation			
yes	12(22.6)	69(37.1)	0.49(0.24, 1.01)
no	41(77.4)	117(62.9)	1.0
Parternal occupation			
yes	51(98.1)	184(98.9)	0.55(0.04, 6.23)
no	1(1.9)	2(1.1)	1.0

* p<0.05

** p<0.01

(): %

표 6. 로지스틱 회귀분석 결과비교

Independent variable (referent)	Parameter estimate	Standard error	Model I OR(95% CI)	+Model II OR(95% CI)
Intrauterine growth restriction	-1.17	0.39	3.23(1.51-6.89)	2.60(0.78-8.56)
History of admission while pregnancy(no)	2.33	0.79	10.26(2.17-48.52)	10.55(2.21-50.38)
High economic status (low)	-2.71	1.84	15.05(0.99-226.82)	14.98(0.96-231.48)
Asphyxia (no)	5.40	1.35	222.13(15.63-999.0)	221.89(15.78-999.0)

† : by logistic regression models including gestational age as a continuous variable.

4. 어머니의 생활유형별 및 환경 요소별 비차비

환자군과 대조군의 어머니 생활유형별 그리고 환경 요소별 분포 및 비차비는 표 5와 같다. 경직형 사지마비에 이환될 위험은 아동의 출생당시 가구 총 월수입이 고소득(250만원 이상)인 경우 중등도(150만원-249만원)와 비교하여 비차비가 0.38(95% CI 0.16-0.92)로 유의하게 낮았다.

5. 경직형 사지마비 발생에 영향을 미치는 요인 분석

경직형 사지마비 발생에 영향을 미치는 위험요인을 알아보기 위하여 단일변량분석에서 유의하였던 변수들을 각 영역별로 다변량 로지스틱 회귀분석을 사용하여 분석한 후 유의한 변수들을 마지막 로지스틱 모델에 포함시켰다.

경직형 사지마비 발생에 영향을 미치는 관련요인에 관한 분석 결과는 표 6과 같다. 마지막 다변량 로지스틱회귀분석에 포함된 변수들은 아동인구 특성

에서 자궁내성장제한 정도, 의료 필요성의 특성에서 어머니의 입원력과 출생시 가사, 그리고 어머니의 생활유형에서 가구 총 월 수입이 고소득군(250만원 이상)이었다. 경직형 사지마비의 발생에 영향을 미치는 유의한 위험요인은 출생시 가사(OR=222.13, 95% CI 15.63-999.0), 임신중 입원 경험(OR=10.26, 95% CI 2.17-48.52), 그리고 자궁내성장제한(OR=3.23, 95% CI 1.51-6.89)이었으나 가구 총 월 수입이 고소득 인 경우는 유의하지 않았다.

재태연령을 보정하였을 때 출생시 가사와 임신중 입원 경험은 유의한 위험요인이었으나 자궁내성장제한은 유의한 위험요인이 아니었다.

IV. 고 찰

환자-대조군 연구는 위험요인을 규명하기 위한 비실험적 연구의 하나로 다양한 위험요인들과 다양한 효과들의 관계를 측정할 수 있으며, 질병의 발생이 드문 뇌성마비와 같은 경우 비차비(odds ratio)를 비교위험도(relative risk)처럼 해석하는 것이 가능

하다(Polivka 등, 1992; Schlesselman, 1982; 신영수와 안윤옥, 1997). 그러나 이미 발생한 결과를 가지고 위험요인에 관한 과거력을 후향적으로 평가하는 방법이므로 질병과 위험요인의 관계로부터 얻은 결과는 직접적인 원인으로 제시하기 어려우며, 다양한 바이아스가 연구 결과에 영향을 줄 수 있다.

이 연구에서는 뇌성마비의 유병사례를 환자군으로 하였기 때문에 생존바이아스(survivor bias)가 있을 수 있으나, 뇌성마비로 인하여 사망하는 경우는 빈번하지 않기 때문에 그 정도가 미미하다. 뇌성마비의 장애정도와 사회·경제적 수준의 다양성을 위하여 6개의 기관으로부터 연구대상을 선택하여 선택 바이아스(selection bias)를 줄이고자 하였다. 또한 대조군을 병원 대조군으로 국한함으로써 발생할 수 있는 선택 바이아스 정도를 알아보기 위하여 우리나라 신생아에 대한 출생시 체중을 대조군과 비교하였다. 뇌성마비의 진단은 각 의료기관의 의무기록을 기초로 하였다. 이 과정에서 정보 바이아스(information bias)가 개입될 수 있으나 각 기관의 진단 기록은 재활의학과 전문의에 의해 진단, 기록되었으므로 타당하다고 판단하였다. 대조군은 정보 바이아스를 피하기 위하여 덴버발달판별검사를 사용하여 운동기능 장애가 없고 정상 발달을 보이는 경우로 국한하였다. 회상 바이아스(recall bias)를 최소화하기 위하여 연구대상자를 학령 전 아동으로 제한하였고, 특정 항목(출생시 체중, 재태연령, 출생시 문제점)에 대하여 타당성을 알아보기 위하여 응답내용과 의무기록을 비교하였다. 측정 바이아스(measurement bias)는 문헌연구를 통하여 비슷한 연구의 설문내용을 사용하여, 면접조사를 위한 교육과 사전조사를 실시함으로써 줄이고자 하였다. 연구설계 과정에서 짝짓기를 하지 않아 생길 수 있는 혼란 바이아스(confounding bias)는 분석단계에서 unconditional 다변량 로지스틱 회귀분석 모델을 사용하여 최소화하였다.

경직형 사지마비 발생의 위험요인으로서는 아동의

출생시 가사와 임신중 어머니의 입원 경험이었다. 재태연령을 보정한 후에 자궁내성장제한이 경직형 사지마비의 발생 위험요인에서 제외되었다.

출생시 가사는 출생 1분 후에 호흡이 확립되지 않았거나 인공호흡을 이용한 소생이 필요한 것을 의미하며(Hagberg 등, 1984), 낮은 Apgar 점수, 호흡보조 도구의 필요, 그리고 신생아 뇌 중에서 비정상적인 태아 또는 신생아의 증상을 기초로 하여 진단되나, 직접적으로 측정 가능한 도구는 없다(Grether와 Nelson, 1998). 이 연구에서는 호흡곤란, 호흡보조 도구의 사용 또는 2분 이상의 울음 지연이 있었던 경우를 출생시 가사로 정의하였다(Grether와 Nelson, 1998; Stanley와 Blair, 1991). 출생시 가사가 뇌성마비의 임상 유형 중 경직형 사지마비의 위험을 증가시킨다고 한 Grether와 Nelson(1998), Hagberg 등(1975b) 그리고 문헌구(1993)의 결과는 이 연구에서 출생시 가사가 경직형 사지마비의 위험요인이었다는 결과와 일치하였다. 출생시 가사를 야기시킬 수 있는 요인으로서는 양수 흡입(meconium staining)과 비정상적인 태아의 심박동이 있으며(김세주와 이명훈, 1997; Topp 등, 1997), 경직형 뇌성마비와 관계된 것으로는 탯줄이 감기는 것이었다(Grether와 Nelson, 1998). 뇌성마비의 원인으로 출생시 가사를 제시하는 연구들은 출산전 원인들을 제외하고 신경학적 손상만을 설명하였으나(Little, 1862), 출생시 가사에 의해 발생하는 뇌성마비는 약 8%-10%인 것으로 추정된다고 하였다(Blair와 Stanley, 1988; Naeye 등, 1989). 또한 Freud(1968)는 태아에게 이미 존재하는 문제가 나타나는 것이라고 하였으며, Petridou 등(1996)과 Topp 등(1997)은 가사의 증상과 태내에서의 뇌손상의 결과로 출생시 가사가 야기된다고 하여 산과적 문제보다는 출산 전 요인을 제시하였다. 그러나 이 연구에서는 연구설계 단계에서 출생시 가사를 야기시킬 수 있는 요인으로 출산시 모성 연령, 분만 형태, 임신중 하혈 경험 등을 고

려하였으나 그 관계를 설명하기에는 대상 수가 적어 다변량 분석에서 제외하였다.

임신중 입원 경험은 경직형 사지마비의 위험요인이었다. 평균 입원일 수는 7.2 ± 6.1 일로 대조군과 차이가 있었다. 경직형 사지마비의 입원 사유로는 임신관련 증후로 13례와 기타로 2례가 있었고, 대조군에서는 각각 6례와 1례가 있었으나 유의한 차이는 없었다. 임신중 입원 경험 자체가 경직형 사지마비의 위험을 증가시킨다고 하기보다는 입원을 유도하는 관련 증후들의 심각성이 위험을 증가시킨다고 할 수 있다. 임신 관련 증후로는 양막흐름, 경관무력, 태아의 이상, 전치태반 등이 있었으나 증후 자체의 위험정도는 평가할 수 없었다.

이 연구는 뇌성마비 발생과 관계 있는 다양한 위험요인들을 가지고 경직형 사지마비 발생에 영향을 미치는 위험요인들을 알아보고자 하였다. 그러나 분석 단계에서 다변량 로지스틱 회귀분석을 사용하여 각 영역 안에서 의미있는 변수를 선정하는 과정에서, 그리고 마지막 분석 단계에서 통계학적으로 의미 있었던 변수만을 포함하였으므로 의학적으로 설명 가능한 변수들이 제외되었을 가능성이 있었다. 그리고 연구 결과를 경직형 사지마비의 직접적인 원인으로 제시할 수 없는 제한점이 있다.

이상의 결과에 의하면 경직형 사지마비의 위험요인들이 의료의 필요성 영역에 포함되어 있었다. 경직형 사지마비는 출생시 가사와 관련되어 의료를 필요로 한 것으로 해석할 수 있다. 출생직후 호흡곤란이나 미숙아로 인하여 인큐베이터 관리를 받게되는 경우는 신생아 집중관리와 정기적인 추적관리를 통해 뇌성마비의 조기진단과 조기치료의 기회를 제공함으로써 증상의 악화를 막을 수 있을 것이다. 그리고 앞으로 출생시 가사를 야기 시키거나 인큐베이터 관리를 받게되는 출산전 요인들을 밝히기 위한 전향적 역학 연구와 이 연구에서 고려하지 못하였던 요인인 모성의 스트레스 정도와 환경적 폭로 등의 요인을 포함한 연구가 필요할 것으로 생각된다.

V. 결 론

이 연구의 목적은 경직형 사지마비 뇌성마비의 발생에 영향을 주는 위험요인들을 분석하기 위한 것이었다. 연구방법은 서울시 소재 3개의 대학병원과 3개의 장애인 복지관에서 뇌성마비로 진단 받은 학령전 아동으로 재활치료를 받고 있는 환자군과, 육아지도소 또는 소아과를 방문한 병원 대조군을 대상으로 환자-대조군 연구를 실시하였다. 구조화된 설문지를 사용하여 환자군 53명과 대조군 186명의 어머니들에게 1998년 10월부터 1999년 2월까지 면접조사한 내용과 의무기록조사를 통하여 얻은 자료를 재태연령을 보정하여 다변량 로지스틱 회귀분석으로 분석한 결과는 다음과 같았다.

경직형 사지마비의 발생에 영향을 주는 유의한 위험요인은 출생시 가사($OR=221.89$, 95% CI 15.78-999.0) 및 어머니의 임신 중 입원 경험($OR=10.55$, 95% CI 2.21-50.38)이었다.

이상의 결과를 종합하면 출산시 가사의 요인과 관계 있는 경직형 사지마비는 산과 및 신생아의 관리를 향상시킴으로써 그리고 신생아 집중관리와 정기적인 추적관리를 통해 경직형 사지마비 뇌성마비의 조기진단과 조기치료의 기회를 제공함으로써 증상의 악화를 막을 수 있을 것이다.

참 고 문 헌

- 김세주, 이명훈. 뇌성마비아의 임상양상. 대한재활학회지. 1997;21:1053-1059.
- 문한구. 만삭아 뇌성마비에서의 뇌성마비 위험인자들의 분석. 대한소아신경학회지. 1993;1:41-49.
- 박창일, 박은숙, 신지철, 등. 뇌성마비의 조기진단을 위한 이학적 평가항목의 개발. 대한재활의학회지 1997;21:679-688.

- 신영수, 안윤옥. 의학연구방법론. 서울대학교출판부, 1997.
- 한국소아과학회. 한국 소아의 정상치. 한국소아과학회. 1997.
- Allen MC. The high-risk infant. *Pediatric Clinics of North America*. 1993;40: 479-490.
- Bax MCO. Terminology and classification of cerebral palsy. *Devel Med Child Neurol*. 1964;6:42-49.
- Blair E, Stanley FJ. Intrapartum asphyxia: A rare cause of cerebral palsy. *J Pediatr*. 1988;112:515-519.
- Blum HL. Planning for health: Generics for the Eighties. New York, Human Sciences Press, 1981.
- Cummins SK, Nelson KB, Grether JK, et al. Cerebral palsy in four northern California counties, births 1983 through 1985. *J Pediatr*. 1993;123: 230-237.
- Emond A, Golding J, Perkhman C. Cerebral palsy in two national cohort studies. *Arch Dis Child*. 1989;64:848-852.
- Freud S. Die Infantile Cerebrallähmung. Wien: A Holder, 1897. Translation: Russin LA. Infantile Cerebral Paralysis. Florida, University of Miami Press, 1968.
- Hagberg B, Hagberg G, Olow I. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden 1954-1970. I. Analysis of the general changes. *Acta Paediatr Scand*. 1975a;64:187-192.
- Hagberg B, Hagberg G, Olow I. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden 1954-1970. II. Analysis of the various syndromes. *Acta Paediatr Scand*. 1975b;64:187-192.
- Hagberg B. The epidemiologic panorama of major neuropaediatric handicaps in Sweden. *Clin Dev Med*. 1978;67: 111-124.
- Hagberg B, Hagberg G, Olow I. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. IV. Epidemiological trends 1959-1978. *Acta Paediatr Scand*. 1984; 73:423-440.
- Hagberg B, Hagberg G, Zetterstrom R. Decreasing perinatal mortality: Increase in cerebral palsy morbidity. *Acta Paediatr Scand*. 1989;78:664-670.
- Hammond J. Cerebral palsy. *J Med*. 1996;15:82-84.
- Little WJ. On the influence of abnormal parturition, difficult labours, premature birth and asphyxia neonatorum on the mental and physical condition of the child, especially in relation to deformities. *Trans Obstet Soc Lond*. 1862. Reprinted in: *Cerebral Palsy Bull*. 1958;1:5-34.
- Murphy DJ, Sellers S, MacKenzie IZ, et al. Case-control study of antenatal and intrapartum risk factors for cerebral palsy in very preterm singleton babies. *Lancet*. 1995;346: 1449-1454.
- Mutch L, Alberman E, Hagberg B, et al. Cerebral palsy epidemiology: where are we now and where are we going ? *Devel Med Child Neurol*. 1992;34:

- 547-555.
- Naeye R, Peters E, Bartholomew M, et al. The origins of cerebral palsy. *Am J Dis Child*. 1989;143:1154-1161.
- Nelson KB, Ellenberg JH. Antecedents of cerebral palsy: Univariate analysis of risks. *Am J Dis Child*. 1985;139:1031-1038.
- Nelson KB, Ellenberg JH. Antecedents of cerebral palsy: Multivariate analysis of risk. *New Engl J Med*. 1986;315:81-86.
- Nelson KB, Grether JK. Potentially asphyxiating condition and spastic cerebral palsy in infants of normal birth weight. *Am J Obstet Gynecol*. 1998;179:507-513.
- O'Reilly DE, Walentynowicz JE. Etiological factors in cerebral palsy: An historical review. *Devel Med Child Neurol*. 1981;23:633-642.
- Petridou E, Koussouri M, Toupadaki N, et al. Risk factors for cerebral palsy: A case-control study in Greece. *Scand J Soc Med*. 1996;24:14-26.
- Pharoah POD. Epidemiology of cerebral palsy: A review. *J Rev Soc Med*. 1981;74:516-520.
- Pharoah POD, Cooke T, Cooke RWI, et al. Birth weight specific trends in cerebral palsy. *Arch Dis Child*. 1990;65:602-606.
- Polivka BJ, Nickel JT. Case-control design: An appropriate strategy for nursing research. *Nursing Research*. 1992;41:250-253.
- Polivka BJ, Nickel JT, Wilkins JR. Cerebral palsy: Evaluation of a model of risk. *Resear Nursing Health*. 1993;16:113-122.
- Schlesselman JJ. *Case-Control Studies: Design, conduct, analysis*. New York, Oxford University Press, 1982.
- Sinha G, Corry P, Subesinghe D, et al. Prevalence and type of cerebral palsy in a British ethnic community: The role of consanguinity. *Devel Med Child Neurol*. 1997;39:259-262.
- Spinillo A, Capuzzo E, Orcesi S, et al. Antenatal and delivery risk factors simultaneously associated with neonatal death and cerebral palsy in preterm infants. *Early Human Devel*. 1997;48:81-91.
- Stanley FJ, Blair E. Why have we failed to reduce the frequency of cerebral palsy ? *Med J Aust*. 1991;154:623-626.
- Topp M, Langhoff-Roos J, Uldall P. Preterm birth and cerebral palsy. Predictive value of pregnancy complications, mode of delivery, and Apgar scores. *Acta Obstet Gynecol Scand*. 1997;76:843-848.
- Torfs CP, van den Berg BJ, Oechsli FW, et al. Prenatal and perinatal factors in the etiology of cerebral palsy. *J Pediatr*. 1990;116:615-619.