

혈복강 소견으로 내원한 자궁파열을 동반한 침윤성 기태 1예

부산대학교 의과대학 산부인과학교실, *병리학교실
김지연 · 김기형 · 신병섭 · 안기현 · 이진숙* · 윤만수

A Case of Invasive Mole with Uterine Rupture Presenting as a Hemoperitoneum

Ji Yeon Kim, M.D., Ki Hyung Kim, M.D., Byung Sub Shin, M.D.,
Ki Heon Ahn, M.D., Jin Sook Lee, M.D.*, Man Soo Yoon, M.D.

Department of Obstetrics and Gynecology,

**Department of Pathology, College of Medicine, Pusan National University, Pusan, Korea*

Invasive mole is defined as the invasion of molar villi into myometrium or the metastasis on several organs from hydatidiform mole. It is not understood accurately, because this disease is clinically occult and the diagnosis is usually made on the basis of hysterectomy. An invasive mole causing uterine rupture is a rare occurrence. We describe below a case with an unusual hemoperitoneum finding. The patient underwent total abdominal hysterectomy and pathologic examination indicated invasive mole. A brief reviews of related literatures was done.

Key Words : Invasive mole, Uterine rupture, Hemoperitoneum

서 론

임신성 용모성 질환은 임신과 관련된 영양배엽이 국소적으로 또는 광범위하게 비정상적인 증식을 일으키는 질환으로 조직학적으로는 포상기태(hydatidiform mole), 침윤성 기태(invasive mole), 태반부착부위 용모상피성 종양(placental site trophoblastic tumor), 용모상피암(choriocarcinoma)으로 분류되고, 임상증상과 용모성선자극 호르몬의 연속적인 측정을 통해 양성인 포상기태와 악성인 용모성 종양(gestational trophoblastic tumor)으로 구분하고 있다.

포상기태는 비정상적인 임신에 기인한 종양질환으로 영양배엽의 증식과 용모막의 부종을 수반하며, 이는 완전 포상기태와 부분 포상기태로 분류된다. 포상기태의 역학에 대하여 조사된 연구에 의하면 발생률

은 지역에 따라 많은 차이를 나타내고 있는 것으로 보고되었는데, 미국의 경우 임신 1000명 당 0.6-1.1명의 발생률을 보이지만 일본은 임신 1000명 당 2명의 발생률, 한국의 경우 1000명 당 1.6명의 발생률을 각각 보인다.^{1,2}

침윤성 기태는 주로 완전포상기태에서 유발되나 부분포상기태에서도 나타날 수 있다. 침윤성 기태에 대한 많은 연구와 보고가 있지만, 아직까지 침윤성 기태의 양태에 대해서는 논란의 여지가 많다. 침윤성 기태의 가장 큰 위험은 출혈이며, 사망원인의 대부분을 차지한다.³

저자들은 혈복강 소견을 보이며 자궁파열 소견이 있어 응급으로 전자궁적출술을 시술하고 조직학적으로 침윤성 기태로 확인된 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 신○숙, 43세

주 소 : 하복부 동통

월경력 : 초경은 15세, 주기는 30일로 규칙적이었고 지속기간은 5-6일이었다. 양은 다소 많은 편이었고 그외 특이 사항은 없었다.

산과력 : 2-0-2-2

기왕력 : 1986년 둔위로 인해 제왕절개술을 시술받았고 1989년 반복제왕절개술을 시행받았다.

가족력 : 특이 사항 없음.

현병력 : 환자는 최종 월경일을 기준으로 무월경 5주에 개인 산부인과의를 방문하여 자궁내 임신낭을 확인 후 소파수술을 시행받았다고 하며, 이후 1달 가량 질출혈이 지속적으로 있었다. 당시 조직검사가 의뢰되지 않아 병리조직학적 진단 결과를 알 수 없었다. 본원에 내원하기 전 복통과 구토 증상으로 근처 병원 내과에서 치료받아오다가 지속적인 복통과 혈액검사상 심한 빈혈 소견을 보여 본원으로 전원되었다.

이학적 소견 : 입원당시 의식은 명료했으며, 혈압은 80/50 mmHg, 심박수는 104회였고, 체온 및 호흡수 등의 신체 활력증후는 정상이었고, 영양상태 및 체격은 중등도였다. 복부는 다소 팽만되어진 상태였으며 압통 및 반사통이 있었다. 골반 진찰상 점상출혈 정도의 질출혈 외에 외음부와 질벽은 정상이었고, 복벽의 긴장상태로 골반내진이 다소 어려웠으나 자궁은 다소 커져있었고, 부속기 종괴는 만져지지 않았다.

검사 소견 : 혈액검사상 혈색소치는 4.9 gm/dL이었고, 헤마토크리트는 13.8%이었다. 혈액응고기능, 요검사, 간기능, 신기능 검사는 정상이었고, 단순 흉부 X-선 사진에서 우측에 소량의 늑막삼출액(pleural effusion)이 보였다. 복부 초음파 소견상 자궁강내에는 전체적으로 벌집 모양으로 보였고, 자궁주위로 다량의 액체저류 소견이 관찰되었으며, 자궁가까이에 혈종으로 보이는 echogenic material이 붙어 있는 소견을 보였다(Fig. 1a). 그리고 전반적인 혈복강 소견을 보였다(Fig. 1b).

수술 소견 : 혈복강 소견으로 수혈과 수액주입으로 활력증후를 교정한 후 전신마취하에 응급 개복술을 시행하였다. 복강내에는 다량의 혈종과 혈액이 있었으며, 2,500 cc 가량의 혈액을 흡인하였다. 자궁은 약 10주 정도의 크기였으며 전벽에 2.5 cm 가량의 파열된 부분과 낭포성의 기태성 조직이 붙어 있었다. 자궁하

절은 과거 제왕절개술의 흔적이 보였으며 방광과의 유착소견은 없었다. 전자궁적출술을 시행하고 배액관을 삽입 후 수술을 종료하였다.

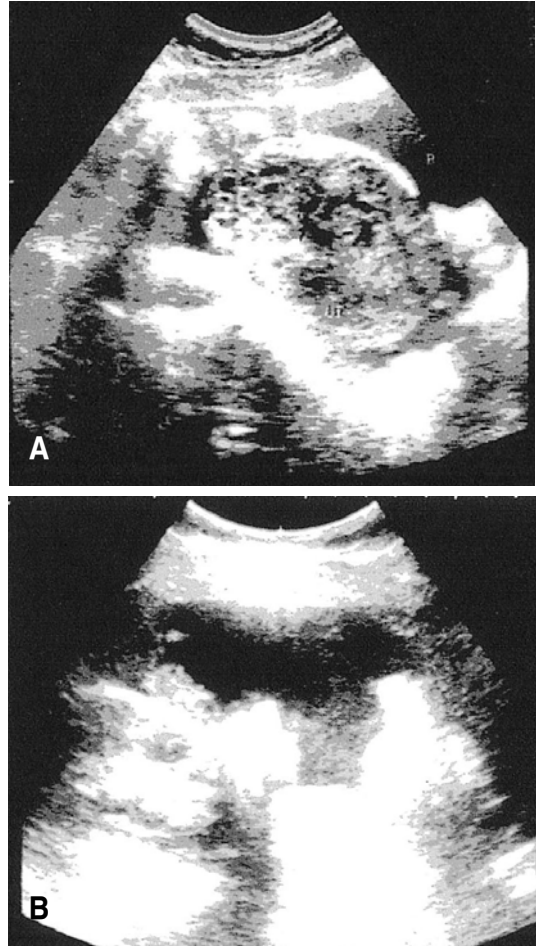


Fig. 1. Transabdominal ultrasound showing an enlarged uterus contained multiple small sonolucent spaces looking "Honeycomb" appearance, large amount of fluid collection surrounding uterus and multiple echogenic material adjacent to uterus (a), and showing complex fluid in the abdomen, with clot adjacent to the left kidney (b).

병리학적 소견

육안적 소견 : 자궁의 파열된 부분이 있었고, 절제시 단면에서는 자궁근층내 출혈성 병변이 직경 약 3 cm 가량으로 보였다.

현미경적 소견 : 수포성 변화를 보이는 용모와 광범위하게 증식된 영양막세포들이 자궁근층으로 침윤하고 있었다(Fig. 2).

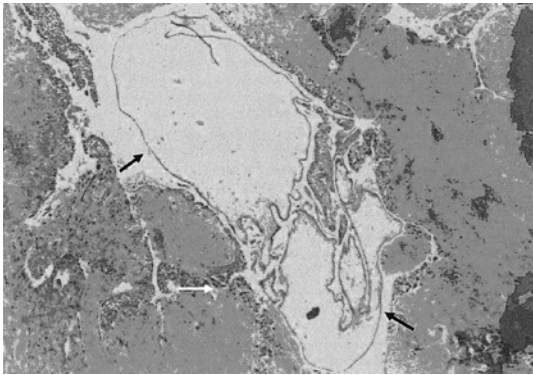


Fig. 2. Microphotograph showing myometrial invasion of hydropic villi (black arrow) and diffusely proliferative trophoblasts (white arrow).

수술 후 경과 : 수술 후 환자의 상태는 빠른 회복을 보였고, 최종 병리조직 검사에서 침윤성 기태 소견을 보여 Methotrexate 단독요법으로 치료중 혈청 β -hCG (human chorionic gonadotropin) 값이 상승하여 EMA (etoposide, methotrexate, actinomycin-D)요법을 5회 시행하였으나, 다시 β -hCG 수치가 증가하는 양상보여 EMA-CO (etoposide, methotrexate, actinomycin-D, cyclophosphamide, vincristine) 요법을 5회 시행하여 생화학적 경쾌(Fig. 3)를 보였다. 이후 외래에서 지속적인 추적 관찰중이다.

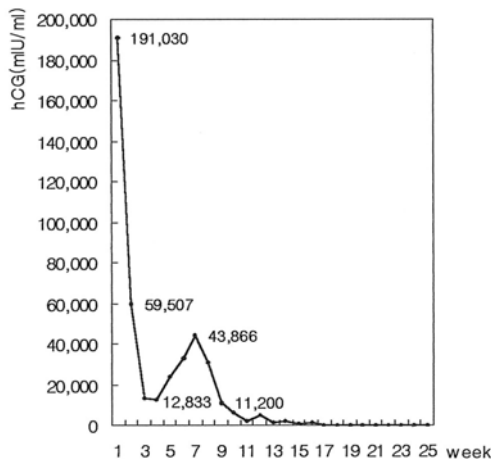


Fig. 3. The course of serum β -hCG levels during treatment.

고 찰

임신성 용모성 질환은 조직학적으로는 포상기태,

침윤성 기태, 태반부착부위 용모상피성 종양, 용모상 피암으로 분류되며 임상적으로는 포상기태와 용모성 종양으로 구분된다. 포상기태는 다시 완전 포상기태와 부분 포상기태로 구분된다.

포상기태의 발생빈도는 지역에 따라 많은 차이를 나타내고 있는 것으로 보고되었는데 일반적으로 아시아 지역이 구미지역보다 높고 백인보다 동양인에서 높다고 보고되고 있으나 그 지역적 차이의 원인은 확실하지 않다.⁴

침윤성 기태는 포상기태의 병리학적 소견을 보이며 과다한 영양배엽의 증식이 자궁근층을 깊이 침범하였거나 여러 장기에 전이를 일으킨 경우를 말하는데, 대부분 기태 제거 후 6개월 이내에 나타난다.³ 모든 포상기태의 5-10%에서 자궁근층 침범의 소견을 보인다고 보고되어 있다.^{5,6} 그러나 소파술을 시행할 때 자궁근층을 채취하기가 어려우므로 자궁적출술에 의해 얻어진 조직이 아니므로 침윤성 기태의 해부학적 진단을 얻기가 매우 어려우므로 이 질환의 발생빈도를 정확히 알기는 어렵다. 전이는 폐와 질에 흔하게 발생하나 Wilson 등⁷은 전이성 침윤성 기태가 어떠한 치료없이 자연완해를 보인 것을 보고하였다.

완전포상기태 제거후의 침윤성 기태의 발생율은 잘 알려져 있는 반면에, 부분포상기태 이후의 발생의 유무와, 발생한다면 그것의 발생빈도에 대해서는 논란이 많다. Berkowitz와 Goldstein⁸은 완전포상기태는 약 10%에서 지속성 용모 종양으로 진행하여 침윤성 기태가 발견되고, 부분포상기태에서는 약 4%에서 지속성 용모종양이 발견된다고 보고하였다. Matsui 등⁹은 완전포상기태와 부분포상기태 제거후 침윤성 기태의 발생빈도를 조사하였는데, 완전포상기태에서는 12.5%, 부분포상기태에서는 1.5%의 침윤성 기태의 발생빈도를 보고하였다.

일반적으로 자궁파열은 드물게 일어나며 2,000분당 1명꼴로 발생한다. 관련된 위험인자로는 자궁근층을 침범하는 자궁의 수술력, 이전의 자궁소파술, 외상, 다산부, 옥시토신의 자극, 양수주입에 의한 자궁의 과팽창 등을 고려해 볼 수 있다.¹⁰

침윤성 기태가 위험한 가장 큰 이유는 이 종양이 자궁근층을 침범하여 파괴하고 모체의 혈관에 침범하여 출혈, 복강내출혈, 또는 자궁파열을 일으키는 것이다. 침윤성 기태의 사망률을 약 10%이며, 사망원인의 대부분은 출혈에 의한 것이다.³

문헌 고찰에 의하면 1988년 Kyodo 등¹¹은 임신 2삼

분기에 자궁파열로 전자궁적출술을 시행한 후 침윤성 기태가 확인된 예를 보고하였는데, 환자는 33세로 2번의 분만력과 1회의 자궁소파술을 시행받은 적이 있었고, 임신 17주에 복통으로 내원하여 개복술을 시행받았다. 이 경우 이전 분만과 유산에 따라 자궁벽이 약화되었고, 태아가 자라면서 자연적으로 자궁파열이 일어난 것으로 생각되어지며, 또한 생존 태아와 침윤성 기태가 동반된 사실 역시 주목할 만하다. 1992년 Atala 등¹²이 보고한 침윤성 포상기태에 동반된 자궁파열에 대한 증례를 보면, 환자는 2개월 전에 유산한 적이 있으며 이후에 지속적인 질출혈을 호소하여 입원하였다. 내원시 용모성선자극호르몬은 25,000 mIU/ml이었으며 자궁내막 소파술을 시행한 후 혈복강 소견을 보여 수술을 시행받았고 자궁적출술시 광인대내에 용모조직이 발견되었다. 이후 항암요법을 시행하였고, 심한 면역기능저하, 패혈증, 심낭출혈 소견을 보여 5개월 후 사망하였다. 1994년 Kaczmarek 등¹⁰은 이전 임신에서 침윤성 기태로 치료받은 임부에서 차기 임신시 진통중 자궁파열이 동반된 예를 보고하였다. 특히 할만한 것은 초산모(primipara)에서 자궁파열이 생겼다는 사실이며, 이전 기태성 임신이 향후 자궁파열의 가능성을 높인다는 것에 대해서는 아직 밝혀진 바가 없다. 환자는 이전에 3차례 자궁소파술을 시행한 적이 있으나 자궁천공은 발생한 적이 없었다고 하나 아마도 반복된 자궁소파술에 의해 자궁벽이 손상을 입고 이로 인해 자궁파열이 일어났을 것으로 추정된다.

본 증례에서는 최종 월경일을 기준으로 무월경 5주에 개인 산부인과의를 방문하여 임신을 확인 후 소파수술을 시행받았으며 이후 1달 가량의 지속적인 질출혈을 호소하였고, 구토와 복통 증상으로 근처 병원 내과에서 치료받아오다가 어지러움증, 심한 빈혈 소견 그리고 지속적인 복통을 주소로 본원으로 전원되었다. 문헌 고찰상 침윤성 기태에 의한 자궁파열에 대한 보고는 전세계적으로 몇 예의 보고에 지나지 않았다.

이에 저자들은 혈복강 소견을 보이며 자궁파열 소견있어 전자궁적출술을 시술받고 조직학적으로 침윤

성 기태를 진단받은 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

참고문헌

1. Palmer JR. Advances in the epidemiology of gestational trophoblastic disease. *J Reprod Med* 1994; 39: 155-62.
2. 대한산부인과학회. 부인과학. 제3판. 서울: 도서출판 칼빈서적 1997; 1223-4.
3. 대한산부인과학회. 부인과학. 제3판. 서울: 도서출판 칼빈서적 1997; 1236.
4. Montes-de-Oca-Valero F, Macara L, Shaker A. Twin pregnancy with a complete hydatidiform mole and co-existing fetus following in-vitro fertilization: case report. *Hum Reprod* 1999; 14: 2905-7.
5. Delfs E. Chorionic gonadotropin determinations in patients with hydatidiform mole and choriocarcinoma. *Ann N Y Acad Sci* 1959; 80: 125.
6. Brewer JJ, Torok EE, Webster A, Dolkart RE. Hydatidiform mole and a follow-up regimen for identification of invasive mole and choriocarcinoma and for selection of patients for treatment. *Am J Obstet Gynecol* 1968; 101: 557.
7. Wilson RB, Hunter JS, Dockerty MB. Chorioadenoma destruens. *Am J Obstet Gynecol* 1961; 81: 546.
8. Berkowitz RS, Goldstein DP. Reproductive experience after complete and partial molar pregnancy and gestational trophoblastic tumor. *J Reprod Med* 1991; 36: 3-8.
9. Matsui H, Lizuka Y, Sekiya S. Incidence of invasive mole and choriocarcinoma following partial hydatidiform mole. *Int J Gynaecol Obstet* 1996; 53: 63-4.
10. Kaczmarek JC, Kates R, Rau F, Kohorn E, Curry S. Intrapartum uterine rupture in a primiparous patient previously treated for invasive mole. *Obstet Gynecol* 1994; 83: 842-4.
11. Kyodo Y, Inatomi K, Abe T, Kudo K. A case report of destructive mole after uterine rupture. *Am J Obstet Gynecol* 1988; 158: 1182-3.
12. Atala C, Riedemann R, Biotti M, Ramirez F, Paublo M. Invasive mole with uterine rupture. *Rev Chil Obstet Ginecol* 1992; 57: 356-8.

국문초록

침윤성 기태는 과다한 영양배엽의 증식이 자궁근층을 침범하였거나 여러 장기에 전이를 일으킨 경우를 말하는데, 이 질환의 양태에 대해서는 정확하게 알려져 있지 않다. 이 종양의 증상으로는 자궁근층의 국소침범에 의한 출혈, 복강내출혈, 또는 자궁파열이 있을 수 있다.

저자들은 혈복강 소견을 보이며 자궁파열 소견이 있어 전자궁적출술을 시술받고 조직학적으로 침윤성 기태를 진단받은 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

중심단어 : 침윤성 기태, 자궁파열, 혈복강