

PRIMARY UTERINE SEROSAL PREGNANCY WITH MYOMETRIAL INVASION

Min Jung Kang, MD¹, Jung Kyung Joo, MD¹, Ji Hyun Kang, MD¹, In Sook Joo, MD, PhD¹, Yangsoon Park, MD², Kyoung Young Seo, MD, PhD¹

Departments of ¹Obstetrics and Gynecology, ²Pathology, Veterans Health Service Medical Center, Seoul, Korea

Ectopic pregnancy is reported to be 1.5%-2% of all pregnancies. Ectopic pregnancy varies with the site of implantation; abdominal pregnancy has been reported to occur in approximately 1% of patients with ectopic pregnancy. Especially, uterine serosal pregnancy is an extremely rare form of abdominal pregnancy. Although variable diagnostic imaging methods have been developed, accurate diagnosis of the abdominal pregnancy using noninvasive imaging study is still difficult. Delayed diagnosis leads to high maternal morbidity and mortality in relation to massive bleeding. Therefore, diagnostic laparoscopy or laparotomy is generally considered to patients with uncertain diagnosis of the abdominal pregnancy. We experienced a case of primary uterine serosal pregnancy that had a rupture of gestational sac with myometrial invasion. We finally confirmed a definite site of the ectopic pregnancy through laparoscopic exploration. That precise location could be not found by pelvic ultrasonography and magnetic resonance imaging. The patient underwent a subtotal hysterectomy.

Keywords: Ectopic pregnancy; Abdominal pregnancy; Uterine serosal pregnancy; Diagnostic laparoscopy

자궁외임신은 전체 임신의 1.5%~2%를 차지하며, 이 중 복강임신은 1만 건의 출생 당 1건 정도 발생하는 매우 드문 형태의 자궁외임신으로 전체 자궁외임신의 약 1%에서 보고된다[1,2]. 복강임신은 그로 인한 대량 출혈 등과 관련하여 모성 사망률이 다른 자궁외임신에 비해 7.7배, 정상임신에 비해 89.8배나 높은 것으로 보고된 바 있으며[1], 모든 형태의 자궁외임신 중에서 모성 사망률이 가장 높은 것으로 알려져 있다[2]. 그러므로 복강임신과 관련한 모성 사망률과 이환율을 줄이기 위해서는 초기에 정확한 진단을 하는 것이 중요하다.

자궁장막임신이란 자궁외임신 중 복강임신의 매우 드문 형태로서, 임신 산물의 착상이 자궁장막에 일어나는 질환을 말한다. 그러나 자궁장막임신의 발병 빈도가 극히 낮아 이 질환에 대한 증례 보고만 있을 뿐이며 현재까지 병인, 유병률, 위험인자, 증상, 진단 및 치료에 관한 전반적인 고찰은 찾아보기 어려운 실정이다.

본 저자들은 골반초음파와 자기공명영상 시행 후 난소임신으로 판단되었으나, 복강경수술에서 자궁장막임신으로 진단되어 개복수술을 시행하던 중 임신낭의 파열 및 과다 출혈로 인해 아전자궁절제술(subtotal hysterectomy)을 시행한 일차성 자궁장막임신 1예를 경험하여 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

주 소: 무월경 7주 3일 및 2주 전부터 발생한 하복부 통증

산과력: 2-0-0-2

월경력: 초경은 15세, 주기는 28일로 규칙적이었고 기간은 6-7일간이었다. 월경량은 중등도였으며 생리통을 간헐적으로 호소하였다. 최종 월경일은 2010년 10월 30일이었다.

과거력: 2001년, 2002년 제왕절개술 2회

가족력: 특이사항 없었다.

현병력: 상기 40세 여자환자는 무월경 7주 3일로 내원 2주 전부터 하복부 통증이 있어서 개인 산부인과 의원에 내원하였다가 좌측 난관임신 의증하에 본원 산부인과에 내원하였다.

Received: 2011.11.17. Revised: 2012.1.9. Accepted: 2012.1.30.

Corresponding author: Kyoung Young Seo, MD, PhD

Departments of Obstetrics and Gynecology, Veterans Health Service Medical Center, 53 Jinhwangdo-ro 61-gil, Gangdong-gu, Seoul 134-791, Korea

Tel: +82-2-2225-1376 Fax: +82-2-2225-4374

E-mail: kvhsy@hanmail.net

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 non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2012. Korean Society of Obstetrics and Gynecology

증례

환자: 김 O 화, 40세

이학적 소견 및 검사 소견: 내원 당시 의식은 명료하였고 혈압은 120/80 mm Hg, 맥박 72회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.7°C였으며, 계통검사에서 하복부 통증 이외의 증상은 없었다. 또한 이학적 검사에서 하복부 전반에 압통과 반사통이 있었으며, 좌측의 통증이 더 심하였다. 내진검사에서 자궁의 크기는 정상이었고, 경부의 이동성 압통은 증명하지 않았다. 양측 자궁부속기도 비임신 시 크기였으며 특별하게 만져지는 종괴는 없었다. 자궁 경관은 개대되지 않았고, 출혈 소견도 없었다.

검사실 검사 소견: 입원 당시 혈액검사서 혈색소 12.9 g/dL, 적혈구 용적 37.0%이었고, 백혈구와 혈소판 수치는 정상이었다. 혈액응고검사, 간기능검사, 신기능검사서 특이 소견은 없었다. 간염항원검사와 매독검사는 음성이었고 소변검사, 흉부 X선 및 심전도검사에서도 특이 소견은 없었다. 혈청 베타 사람융모성 생식샘자극호르몬(β -human

chorionic gonadotropin, β -hCG)은 10,000 mIU/mL 이상을 보였다.

골반초음파 소견: 자궁내 임신낭은 관찰되지 않고, 좌측 난소 부위에 약 3 cm 크기의 임신낭이 보였으며, 임신낭내에 1 cm 크기의 태아 심박동이 있는 태아극이 보였다. 더글라스와에서 저류액은 보이지 않았다.

골반자기공명영상 소견: T2 강조영상에서 좌측 난관 후방으로 난소가 있어야 하는 위치에 2.7 cm 크기의 임신낭으로 추정되는 종물이 확인되었고, 난소를 주변 스캔에서 확인할 수 없어 난소임신을 의심하였다 (Fig. 1).

수술 소견: 좌측 난소임신으로 간주하고 전신마취하에 복강경수술을 시행하였다. 약 2 mL 정도의 혈액이 더글라스와에 고여있었다. 자궁은 달걀 크기보다 약간 컸으며 양측 난소, 난관 모두에서 임신낭으로 의심할 만한 종물은 관찰되지 않았으며, 양측 난관에서 열상, 파열 등의 특이 소견은 없었다. 좌측 난소에 약 1.5 cm 가량되는 난소낭종이 있어 전기소작으로 내용물을 확인하였고 장액성의 액체로 확인되었다. 자궁후면 좌측 하체부의 옆쪽으로 넓은 인대를 밀면서 용기되어 있는 약 2.5 cm 크기의 종물이 관찰되었다(Fig. 2). 관찰된 종물은 파열의 흔적이나 내부 출혈의 흔적은 보이지 않았고 눌렀을 때 부드럽게 눌려졌다. 자궁내임신 혹은 병합임신의 가능성을 배제하기 위해 자궁내막소파술을 시행하여 응급동결절편검사를 시행하였고, 용모막성 용모와 영양막 세포는 관찰되지 않았다. 관찰된 종물에서 임신낭을 확인하기 위해 복강경하에 종물 부위에 내시경 검사를 대고 질식 초음파를 시행하여 임신낭 및 태아 심박동을 확인하였다. 이에 자궁장막임신으로 추정하였으며, 수술 중 과다 출혈의 위험성을 고려하여 개복수술로 전환하였다. Pfannenstiel 절개를 통해 개복하였고, 개복하던 중 자궁 좌측 하체부에 위치해 있던 임신낭으로 추정되는 종물이 파열되면서 대량 출혈이 발생하였다. 자궁 좌측 하체부 장막의 전외측(anterolateral) 부위는 표면이 불규칙하고 출혈이 동반되어 있었으며, 파열되어 나온 종물로 응급동결절편검사를 시행하여 현미경검사서 용모막성 용모와 영양막 세

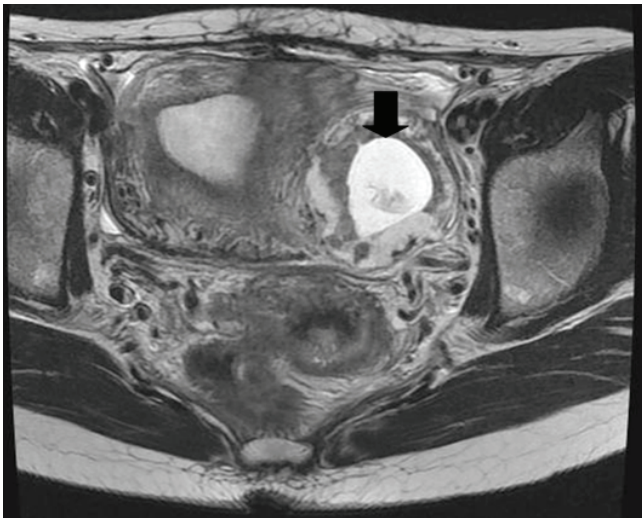


Fig. 1. Pelvic magnetic resonance imaging. A cavity (arrow) that showed high signal intensity on T2-weighted image was seemed as a gestational sac in the region of left ovary.

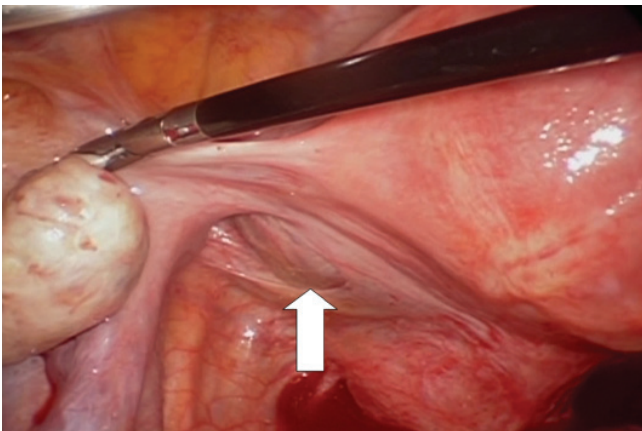


Fig. 2. Laparoscopic finding. There was about 2.5 cm sized bulging mass (arrow) in the left posterolateral serosa of the uterus.



Fig. 3. There was an irregular denuded implantation site at left antero-lateral surface of the subtotally resected uterus. The rupture of gestational sac and massive hemorrhage occurred in this uterine surface.

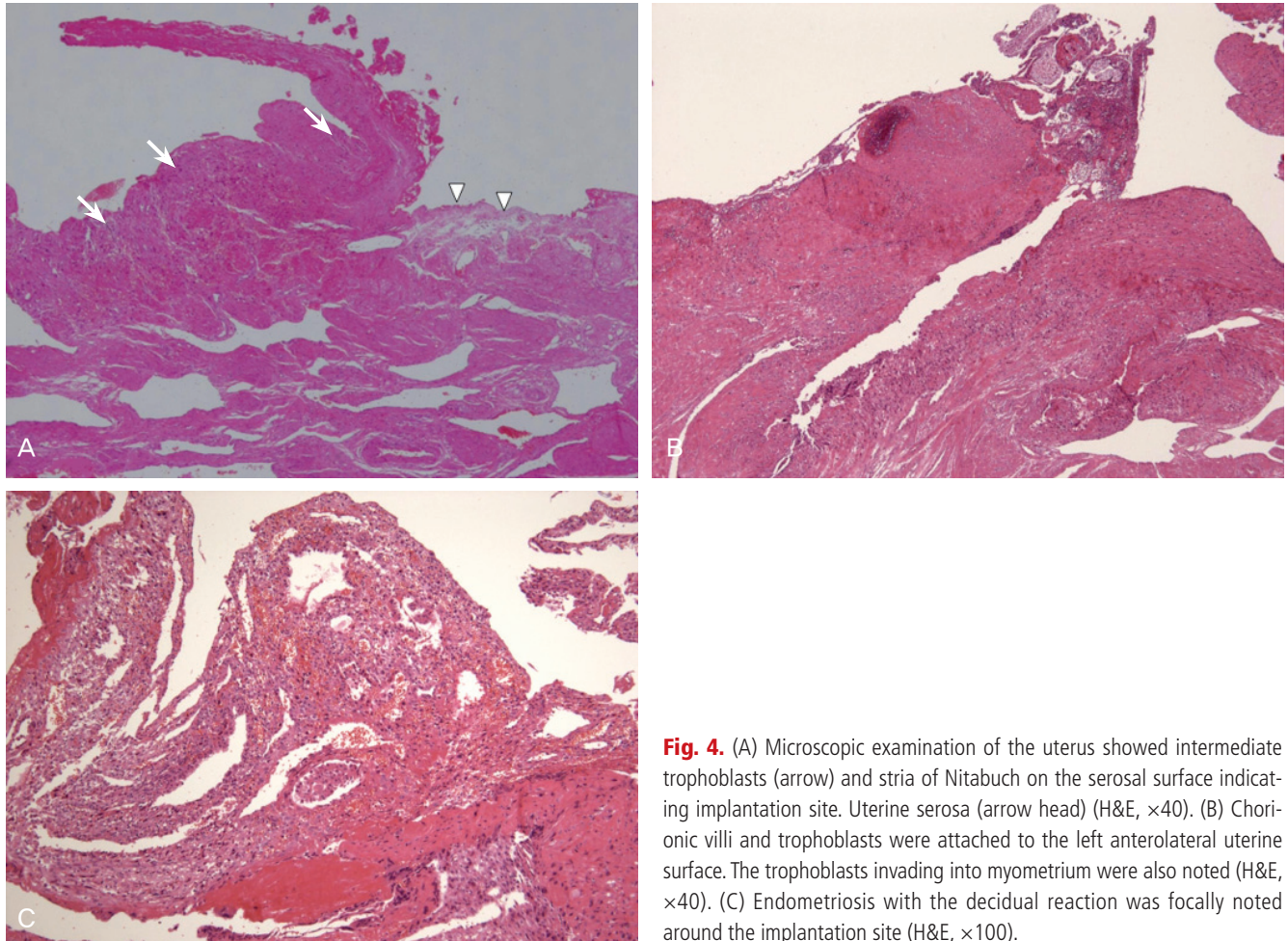


Fig. 4. (A) Microscopic examination of the uterus showed intermediate trophoblasts (arrow) and stria of Nitabuch on the serosal surface indicating implantation site. Uterine serosa (arrow head) (H&E, $\times 40$). (B) Chorionic villi and trophoblasts were attached to the left anterolateral uterine surface. The trophoblasts invading into myometrium were also noted (H&E, $\times 40$). (C) Endometriosis with the decidual reaction was focally noted around the implantation site (H&E, $\times 100$).

포를 확인하였다. 자궁 좌측 하체부장막의 착상 부위에서 조절되지 않는 출혈이 지속되었고, 이에 아전자궁절제술을 시행하였다.

병리검사 소견: 육안검사에서 자궁 좌측 하체부 장막의 전외측면 부위에 표재성의 불규칙한 손상과 출혈이 관찰되었다(Fig. 3). 현미경검사에서 자궁장막 표면에 표재성으로 중간 영양막 세포(intermediate trophoblasts)와 Nitabuch 선(stria of Nitabuch)이 관찰되었다(Fig. 4A). 또한, 융모막성 융모 및 합포체 영양막 세포가 자궁근층에 유착되어 있었으며 중간 영양막 세포가 자궁근층내로 침윤되어 있었다(Fig. 4B). 일부에서는 탈락막 반응을 동반한 자궁내막증 소견을 보였으나 선근증(adenomyosis) 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 4C). 이러한 소견들을 바탕으로 자궁장막이 원발성 착상 부위이면서 국소적으로 자궁근층을 침범한 복강임신을 확인할 수 있었다.

수술 후 경과: 수술 후 활력 징후에 이상이 없었고, 수술 후 3일째 시행한 혈청 β -hCG는 2,001 mIU/mL이었으며 6일째 추적 검사에서 혈청 β -hCG는 431 mIU/mL로 줄어드는 양상이었다. 환자는 수술 후 6일째 시행한 골반초음파검사에서 정상 소견을 보였고, 하복부 통증이 호전되었으며 특별한 합병증도 발견되지 않아 퇴원하였다.

고 찰

복강임신은 1만 건의 출생 당 1건 정도 발생하는 매우 드문 형태의 자궁외임신으로 전체 자궁외임신의 약 1%에서 보고되고 있으며[1,2], 산모의 사망률과 이환율이 매우 높기 때문에 조기 진단과 치료가 합병증 예방에 필수적이다[2].

복강임신은 일차성 복강임신과 이차성 복강임신으로 분류된다. 일차성 복강임신은 양측 난소 및 난관이 정상인 상태에서 수정란이 처음부터 복강에 착상된 경우로서 직장, 자궁 장막, 그물막, 복벽 등 복강내 구조물에는 어디든지 착상이 가능한 것으로 알려져 있는데[3-5], 이러한 형태의 임신은 이차성 복강임신에 비하여 훨씬 드물다[6]. 이차성 복강임신은 대개 난관임신이 이루어진 후 난관이 파열되거나 수태물이 복강내로 유산되어 발생하며, 매우 드물게 자궁파열로 복강내 착상이 이루어지는 경우를 말한다[6,7]. 본 증례는 병리 소견에서 병변이 자궁 장막 표면에 표재성으로 위치하고 있으며 자궁 장막 표면에 태반 착상 부위를 시사하는 중간 영양막 세포와 Nitabuch 선이 관찰된다는 점[8], 국소적으로 자궁근층 침윤을 보였고 착상 부위에 부분적으로 자궁내막증 소견이 있다는 점과 자궁-복강 누공이나 자궁근층의 선근증 소견이 없

다는 점을 고려했을 때 자궁장막이 원발성 착상 부위로 판단되며, 자궁 근층에서 관찰되는 중간 영양막 세포는 자궁장막 착상 이후 자궁근층으로 침윤해서 들어간 침윤성 중간 영양막 세포로 판단된다. 그리고 난관의 열상이나 파열과 같은 소견이 보이지 않았고, 제왕절개 반흔 부위와의 거리가 자궁 체부 방향으로 대략 3 cm 가량 떨어져 있으면서 부분적으로 절제된 자궁면에는 반흔 부위가 포함되지 않아 이차성 복강임신이나 제왕절개 반흔에 착상된 임신의 가능성은 배제하는 것이 타당해졌다. 이와 같은 일차성 자궁장막임신은 증례를 찾아보기 힘들 정도로 매우 드문 형태의 복강임신이다. 저자들은 PubMed (<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/>)와 국내학술지 원문 데이터베이스 KISS (Koreanstudies Information Service System; <http://kiss.kstudy.com/>)에서 “serosal pregnancy”를 자유 조회(free query) 단어로 전체 검색한 후 초록을 일일이 확인하여 일차성 자궁장막임신 증례를 수집하였는데, 두 시스템에서 각각 1건씩 총 2건의 증례 보고만을 확인할 수 있었다. 특히, 본 증례와 같이 자궁장막임신에서 태반 조직이 자궁근층으로 침윤된 경우는 매우 드물 것으로 생각된다.

일반적으로 초음파검사, 컴퓨터단층촬영 그리고 자기공명영상 등의 영상의학 기법들이 진단에 도움을 줄 수 있다. 이 중 자기공명영상은 자궁외임신의 진단에 있어서 복강에 위치한 태반의 위치를 알아내고 고형장기(solid organ), 장 그리고 그물막 등에 부착되어 있는 태반을 탐지함에 있어 매우 유용한 것으로 알려져 있다[9]. 본 증례에서는 수술 후 여러 관련 소견을 토대로 자기공명영상을 후향적으로 고찰한 결과, 수술 전 확인할 수 없었던 좌측 난소를 발견할 수 있었는데 좌측 난소는 커진 임신낭의 압박에 의해 정상 위치에서 전외측 방면으로 과도하게 이동하였고 상방으로 약간 치우쳐져 있었으며, 임신낭과 난소 낭종에 의해 다소 눌러있어 수술 전 판독에서 발견하기 어려웠던 것으로 평가된다. 한편, 컴퓨터단층촬영의 경우 태반의 위치를 찾는데 있어 자기공명영상보다 유용한 진단 방법이지만 태아에 대한 방사선 노출의 위험성 때문에 보편적으로 사용되지는 않는다[10].

앞서 언급한 바와 같이 자궁외임신의 진단에서 임신낭의 위치를 확인하기 위한 영상의학적인 기법들이 많이 발전해 왔지만 이러한 방법들로는 복강임신에서 임신낭의 위치를 정확히 알아내기 어렵은 경우가 많다. 현재 복강임신에서 가장 정확한 진단 방법은 진단적 복강경이며, 특히 복강내 출혈이 있을 때 즉각적인 치료가 가능하여 모성 사망률과 이환율을 낮출 수 있기 때문에 우선적으로 선택된다[11,12].

대개의 경우 복강임신의 예후는 좋지 않은 것으로 알려져 있는데, 이는 초기에 진단되지 않을 경우 자발적인 임신낭 파열로 인한 대량 출혈의 가능성이 있고, 수술 과정에서도 태반 부착 부위의 완전한 제거가 어려운 것은 물론, 이와 관련된 출혈로 인해 모성 사망률이 높기 때문이다[13]. 본 증례에서도 수술 중 임신낭이 별다른 외부 조작 없이 파열되면서 다량의 출혈이 발생하였고 임신낭 제거 후에도 착상 부위의 출혈이 지속되면서 지혈 술기에 반응하지 않아 결국 아전자궁절제술을 시행하게 됨으로써 수술적 치료의 당위성을 보여주었다. 이러한 과도한 출혈은 부분적으로 자궁근층에 침윤된 태반 조직이 함께 파열되어 발생한 것으로 판단되며, 본 증례에서 착상 부위의 위치나 자궁의 부분

파열로 인한 출혈임을 감안하였을 때 자궁을 보존하기는 어려웠을 것으로 생각된다.

자궁장막임신은 진단적 접근이 난해하여 진단이 지연되기 쉽고, 복강임신의 특성상 산모의 유병률과 사망률뿐만 아니라 태아 사망률이 높기 때문에 조기 수술이 추천되며 수술 중 태반 제거에 세심한 주의가 필요하다. 저자들은 일차성으로 수태 산물이 자궁 장막에 착상 후 자궁 근층까지 침윤되었으며, 개복수술 중 임신낭이 파열되면서 과다 출혈을 일으켜 아전자궁절제술을 시행한 1예를 경험하였기에 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

1. Atrash HK, Friede A, Hogue CJ. Abdominal pregnancy in the United States: frequency and maternal mortality. *Obstet Gynecol* 1987;69:333-7.
2. Fritz MA, Speroff L. Ectopic pregnancy. In: Speroff L, Fritz MA, editors. *Clinical gynecologic endocrinology and infertility*. 8th ed. Philadelphia (PA): Lippincott Williams & Wilkins; 2011. p.1383-412.
3. Martin JN Jr, Sessums JK, Martin RW, Pryor JA, Morrison JC. Abdominal pregnancy: current concepts of management. *Obstet Gynecol* 1988;71:549-57.
4. Delke I, Veridiano NP, Tancer ML. Abdominal pregnancy: review of current management and addition of 10 cases. *Obstet Gynecol* 1982;60:200-4.
5. Studdiford WE. Primary peritoneal pregnancy. *Am J Obstet Gynecol* 1942;44:487-91.
6. Giannopoulos T, Katesmark M. Ruptured tubal ectopic pregnancy with secondary implantation in the pouch of Douglas. *J Obstet Gynaecol* 2004;24:199-200.
7. Radman HM. Abdominal pregnancy: pathogenesis, diagnosis, and treatment. *South Med J* 1978;71:670-1, 80.
8. Kraus FT, Redline RW, Gersell DJ, Nelson DM, Dicke JM. Anatomy, structure, and function. In: Kraus FT, Redline RW, Gersell DJ, Nelson DM, Dicke JM, editors. *Atlas of nontumor pathology: placental pathology*. 1st ed. Washington, DC: American Registry of Pathology; 2004. p.1-22.
9. Lockhat F, Corr P, Ramphal S, Moodley J. The value of magnetic resonance imaging in the diagnosis and management of extra-uterine abdominal pregnancy. *Clin Radiol* 2006;61:264-9.
10. Costa SD, Presley J, Bastert G. Advanced abdominal pregnancy. *Obstet Gynecol Surv* 1991;46:515-25.
11. Brandt AL, Tolson D. Missed abdominal ectopic pregnancy. *J Emerg Med* 2006;30:171-4.

12. Martin JN Jr, McCaul JF 4th. Emergent management of abdominal pregnancy. Clin Obstet Gynecol 1990;33:438-47.
13. Strafford JC, Ragan WD. Abdominal pregnancy. Review of current management. Obstet Gynecol 1977;50:548-52.

자궁근층 침윤을 동반한 일차성 자궁장막임신

보훈공단 중앙보훈병원 ¹산부인과, ²병리과

강민정¹, 주정경¹, 강지현¹, 주인숙¹, 박양순², 서경용¹

자궁외임신은 전체 임신의 1.5%~2%로 보고되고 있으며 그 착상 부위는 다양한데, 그 중 복강임신은 자궁외임신에서 약 1%의 유병률을 보인다. 특히, 자궁장막임신은 복강임신 중에서도 극히 드물게 보고되었다. 다양한 영상진단법이 개발되었지만, 비침습적인 영상의학적 방법만으로 복강임신을 진단하는 것은 여전히 어려운 일이다. 게다가 복강임신 진단의 지연은 대량 출혈로 인한 높은 모성 사망률 및 이환율을 초래하므로 진단이 불명확한 환자에게는 진단적 복강경술이나 개복술을 고려해야 한다. 저자들은 국소적 자궁근층 침윤을 동반하고 임신낭 파열을 일으킨 일차성 자궁장막임신 1예를 경험하였다. 본 증례에서는 수술 전 골반초음파와 자기공명영상에서 정확한 위치를 찾을 수 없었던 자궁외임신의 착상 부위를 진단적 복강경술을 통해 확인하였으며 개복 후 아전자궁절제술을 시행하였다. 이에 저자들은 간단한 문헌 고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

중심단어: 자궁외임신, 복강임신, 자궁장막임신, 진단적 복강경