

태반의 다발성 용모막맥관종

—반복성 유산과 사산을 수반한 1예—

연세대학교 의과대학 영동병원 병리과

정 우 희 · 안 동 원*

서 론

용모막맥관종(chorioangioma)은 태반의 원발성 종양중 가장 흔하며 저자에 따라 차이는 있으나 태반조직을 연속절편하여 면밀하게 검색하는 경우 1~1.2%의 빈도로 출현한다^{1,2)}고 하나 일반적인 검색과정에서 간과되기 쉬워 보고에는 실제보다 많지 않다.

종양의 성상 및 기원에 관하여 여러가지 가설이 있으나 태반의 초기 발생과정에서 나타나는 맥관아세포들의 과오종적인 증식으로 생각하고 있다^{3,7)}. 임상적으로 양수과다증, 분만전 및 후출혈, 조산, 자궁내 태아 곤란(fetal distress) 및 사망과 동반되어 그 의의가 큰 것으로 알려져 있다^{5,8)}.

저자는 반복성 유산력을 가진 산모에서 사산을 수반한 다발성 용모막맥관종 1예를 경험하여 보고하는 바이다.

증 례

환자는 38세 여자로서 네번의 자연유산의 경력이 있으며, 다섯번째 임신 35주만에 조기과수 및 태반조기박리가 있어 사산아를 분만하였다. 산전검사상 양수과다증은 없었으며, 사산아의 외형적 기형은 없었고 부검은 실시하지 못하였다.

조직소견

육안적소견 : 태반은 무게 950 gm, 24×20×2~4 cm의 크기였으며, 전체적인 모양은 원판상이었고, 직경

집 수 : 1985년 월 일

*안세병원 산부인과(연세대학교 의과대학 외래조교수)

**본 논문의 요지는 1985년 2월 15일(서울대학 병원), 월례집담회에서 발표되었음.

6 mm 부터 4 cm 에 이르는 20개의 크고 작은 결절이 태아면(fetal surface)으로 돌출하거나 연속절편상 태반조직내에서 관찰되었다. 절단면은 검붉은 색으로 주위 태반조직과 경계가 분명하였으며, 절절내에 영양혈관(feeding vessel)을 갖거나 분엽을 이루는 것도 관찰되었다.

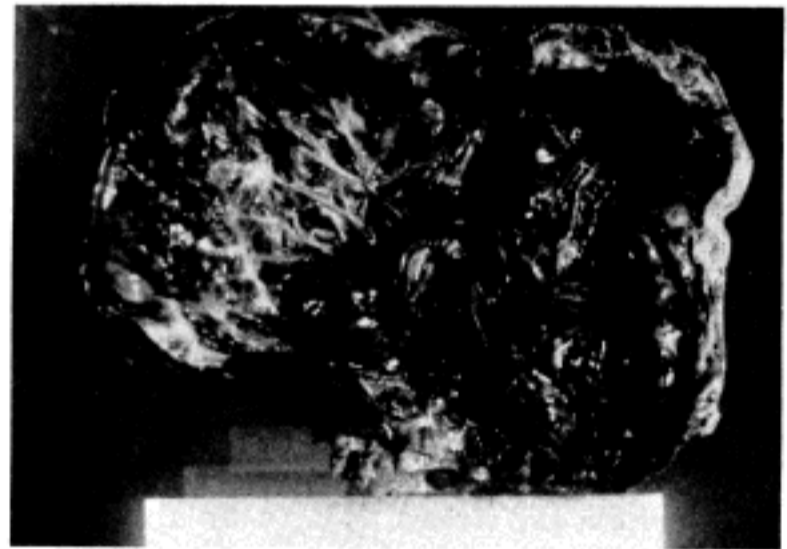


Fig. 1. Multiple protruding nodules seen on the fetal surface.



Fig. 2. Cut section of the largest nodule showing excellent demarcation and feeding vessels.

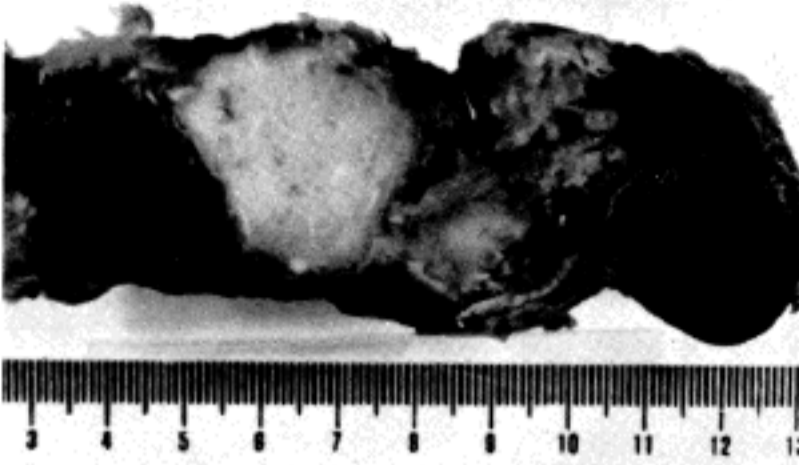


Fig. 3. Cut section of smaller nodules depicting lobular structures.

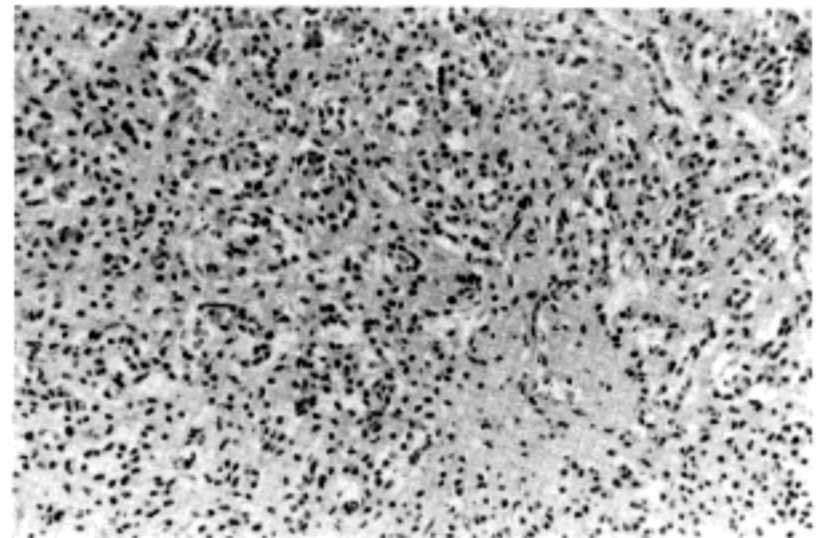


Fig. 5. Endothelial lined capillary structures demonstrating endotheliomatous pattern.(H-E, ×200)

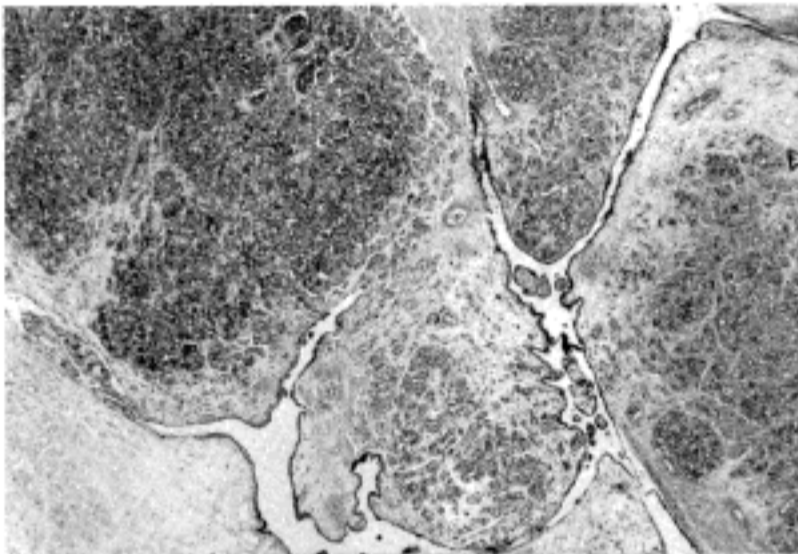


Fig. 4. Villous structures lined by chorionic epithelium with angiomatous proliferation within the stroma.(H-E, ×40)

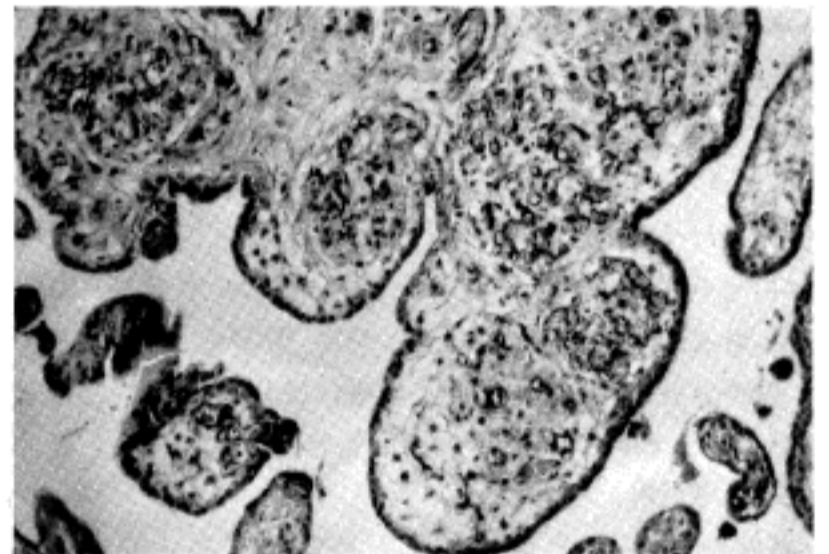


Fig. 6. Hypertrophied villus containing an excess number of vessels at the periphery of the nodule.(H-E, ×100)

현미경적 소견 : 각 결절들은 크기에 관계없이 일률적으로 용모막상피로 둘러싸인 여러개의 용모상 구조물이 분열상을 이루고 있었으며, 그 내부의 간질조직 내에 내피세포로 둘러싸인 모세혈관의 증식이 있었고 부분적인 혈관확장도 관찰되었다. 부위에 따라 간질조직 내의 섬유화는 관찰되었으나 경색이나 석회화는 관찰되지 않았다.

결절의 주변부에서 정상 태반조직에 비하여 약간의 비대와 간질내 혈관의 증가를 보이는 용모들이 관찰되었으며, 육안적으로 정상으로 보였던 나머지 태반조직은 태아의 사망에 따른 사후변화로 생각되는 용모간질의 용해(liquefaction)로 인한 소낭형성, 섬유소침착 및 심한 syncytial knot의 형성등이 관찰되었다.

고 안

용모막백관종의 명칭은 조직학적 소견의 다양성으로 인하여 저자에 따라 20여개나 되는 여러가지 명칭으로 불리워 왔으나^{6,7)}, 예외없이 존재하는 혈관성분에 역점을 두어 Beneke⁸⁾은 chorioangioma 혹은 choriangioma로 부름이 타당하다고 하여 이후 현재까지 가장 널리 사용되어 온 용어이다.

이 종양의 발생빈도 역시 저자에 따른 차이가 커서 Marchetti¹⁰⁾는 8,000내지 50,000개의 태반당 하나의 빈도로 출현한다고 하였으나, Dunn¹¹⁾, Sidall¹²⁾, Wentworth¹³⁾, Fox¹⁴⁾ 및 Wallenberg 등¹⁵⁾은 1~1.2%의 보다 높은 빈도를 보였으며 국내의 지등¹¹⁾은 0.3%(3/1,000)로 보고하였다. 특히 크기가 작은 것은 간과되

거나 그의 용모간혈전이나 경색으로 오인되는 경우가 있어 실제보다 낮은 빈도를 나타내는 것 같다.

종양의 크기는 다양하나 Marchetti¹⁰⁾는 장경 22 cm, 무게 780 gm 되는 것까지 보고한 바 있으며, 대개는 단독결절로 나타나나 Fisher¹²⁾는 25개까지 다발성으로 나타난 예를 보고하였다. 대부분의 종양은 태반조직내에 위치하나 큰 것은 태아면으로 돌출하거나 Barry 등¹³⁾의 경우와 같이 제대내의 혈관에서 기원하여 vascular pedicle로 태반과 연결된 예의 보고도 있다.

Marchetti¹⁰⁾는 조직학적 양상에 따라 angiomatous, cellular, degenerating 등 세가지 유형으로 구분하였으나, 근본적인 차이는 없으며 본예에서와 같이 한 결절내에서도 부위에 따라 달리 나타날 수 있다. 특히 종양의 크기가 큰 경우 혈전이나 순환장애로 인한 출혈 및 경색이 보이거나 그의 섬유화 및 석회화 등의 퇴행성변화가 관찰되나 본 예에서는 용모간질의 섬유화만이 뚜렷하게 관찰되었다. 본예와 같이 종양과 정상 태반조직 사이에 뚜렷한 피막이 존재하지 않는 경우가 대부분이나 섬유조직이나 함포체성 용모막상피로 이루어진 잘 구별되는 피막이 존재한다는 보고도 있다⁷⁾. 때로는 세포분열상이 다수 관찰되어 “육종”이라고 명명한 경우도 있었으나¹⁴⁾ 예외없이 양성경과를 취함은 잘 알려진 사실이다.

이 종양의 성장과 기원에 관하여는 용모의 과형성, 태반의 염증, 용모간융합 및 용모간혈전의 기질화등에 의한다는 가설이 있었으나^{6,7)}, 다른 부위의 혈관종과 마찬가지로 진성종양인지 과오종성증식인지에 관한 두가지 이견이 있다. 드물지만 세포분열상이 관찰되거나 주위 태반조직과 비교하여 성장속도의 차이가 크다는 점이 진성종양임을 시사하는 일면이나, 대다수가 과오종성 증식에 의한다는 의견에 일치된 보고이다.

특히 초기의 태반형성과정에서 나타나는 원시용모간(primary villous stem)의 혈관형성과정중 혈관아세포들의 기형성 증식으로 설명하며 본예에서와 같이 종양이 주로 용모판(chorionic plate) 바로 아래에 위치한다는 점과 결절내의 용모상 구조물안에 stem villi에서 관찰되는 두꺼운 근육층의 벽을 가진 혈관들이 있다는 점이 이를 뒷받침하는 소견이다^{6,7)}. 그러나 Javert¹⁶⁾는 자연유산된 2,000예의 태반조직 가운데 오직 한 예에서 혈관종성 증식을 보인 부위를 발견할 수 있었다 하였으며, 임신중기의 유산에서도 산발적인 소수의 보고만이 있을 뿐이다¹⁷⁻¹⁹⁾. 본 예의 경우 임신 초기 및 중기에 걸친 네차례의 자연유산이 있었으나 용모막맥관종과 동반되었는지의 여부는 알 수 없으며,

다만 원인을 알 수 없는 습관성 유산과 연관지워 그 가능성을 추측할 따름이다.

또한 이 종양은 Myenberg²⁰⁾가 말한 'chorioangiomas'나 Hörmann²¹⁾이 칭한 'chorioangiosis'와 연관시켜 형태발생을 설명할 수 있는데 이들의 경우는 태반 전체의 용모가 비대하여지면서 용모내 태아혈관의 수적 증가와 확장을 동반하는데 용모막맥관종의 주변부나 특히 크기가 작은 종양에서 이와 비슷한 소견이 뚜렷이 나타나며⁶⁾ 본예에서도 결절의 주변부에서 잘 관찰되었다. 따라서 용모막맥관종은 chorioangiosis의 국소적 표현이며, 다발성으로 나타나는 경우가 이들의 중간형태라고 하였다²¹⁾.

이 종양이 임신 및 분만에 미치는 영향은 상당히 커서 약 1/3에서 양수과다증과 동반된다고 하며, 이는 특히 종양의 크기 및 위치와 연관이 있다고 한다^{3,5,8)}. 그러나 강등²²⁾은 오히려 양수과소증과 동반된 예를 보고하였다. 그의 태반조기박리에 의한 출혈과 약 1/3에서 조산을 유발한다 하였으나^{5,8)}, 종양이 직접적인 원인이기보다는 양수과다증 및 출혈로 인한 간접적인 원인으로 생각하고 있다.

태아와 신생아에 미치는 영향으로는 제대압박과 종양의 맥관단락(vascular shunting)으로 인하여 기능을 하는 태반조직이 상대적으로 감소하여 자궁내 태아 곤란 및 사망의 원인이 되며^{3,5,8)}, Strakosch²³⁾는 태아 사망율을 35%까지 보고하였다. 그의 신생아의 피부혈관종 및 단일제대동맥등과도 동반되며, 종양이 동정맥 단락을 일으켜, 심박출량 증가로 심비대를 유발하여 심부전으로 인한 부종, 종양내의 적혈구의 격절(sequestration)로 인한 빈혈 및 혈소판감소증을 일으켜 임상적 측면이 강조되는 종양이기도 하나^{3,5,8)}, 본예에서는 유감스럽게도 부검을 실시하지 못하여 태아에 미친 영향을 알 수 없었다.

결 론

저자들은 반복된 유산력이 있는 38세 산모에서 자궁내 태아사망을 수반한 다발성 용모막맥관종 1예를 경험하고 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Dunn RIS: *Haemangioma of placenta(chorioangioma): report of 9 cases. J Obstet Gynaec Brit Emp 66:51, 1959*

- 2) Sidall RS: *The occurrence of chorioangiobroma(chorioangioma): a study of six hundred placentas. Johns Hopkins Hosp Bull Balt* 38:355, 1962
- 3) Wentworth P: *The incidence and significance of haemangioma of the placenta. J Obstet Gynaec Br Emp* 72:81, 1965
- 4) Fox H: *Hemangiomas of the placenta. J Clin Path* 19:133, 1966
- 5) Wallenberg HCS: *Chorioangioma of the placenta: a thirteen new cases and a review of the literature from 1939 to 1970 with special reference to clinical complications. Obstet Gynec Surg* 26:411, 1971
- 6) Benirschke K, Driscoll S: *The Pathology of the Human Placenta. Springer Verlag, Berlin, 1974*
- 7) Fox H: *Pathology of the placenta. WB Saunders, London, 1978*
- 8) Decosta EJ, Gerbie AB, Andersen RH, Gallanis TC: *Placental tumors: hemangiomas with special reference to an associated clinical syndrome. Obstet Gynec* 7:249, 1956
- 9) Beneke R: *Ein Fall von Chorioangiom. Verh Deutsch Path Ges* 2:407, 1900 (Cited by Benirschke and Driscoll, 1974)
- 10) Marchetti AA: *Consideration of certain types of benign tumors of placenta. Surg Gynec Obstet* 63:733, 1939
- 11) 지계근, 장자준 : 한국인 태반에 관한 연구(연속 1,000예의 육안적 및 현미경적 관찰). *서울의대 학술지* 22:41, 1981
- 12) Fisher JH: *Chorioangioma of the placenta. Am J Obstet Gynec* 40:493, 1940
- 13) Barry FE, McCoy CP, Callahan WP: *Hemangioma of umbilical cord. Am J Obstet Gynec* 62:675, 1951
- 14) Hyrtl J: *Die Blutgefäße der menschlichen Nachgeburt in normalen und abnormen Verhältnissen. Braumüller, Wien, 1870(Cited by Benirschke and Driscoll, 1974)*
- 15) Snoeck J, Wilkin P: *Le chorio-angiome: tumeur bénigne du placenta. Bulletin de la Fédération des Sociétés de Gynécologie et d'Obstétrique de Langue Francaise, 4:644, 1952(cited by Fox, 1978)*
- 16) Javert CT: *Spontaneous and Habitual Abortion. Blakiston, McGraw Hill Co NY, 1957*
- 17) Benirschke K, Bourne GL: *Plasma cells in an immature placenta. Obstet Gynec* 12:495 1958
- 18) Earn AA, Penner DW: *Five cases of chorioangioma. J Obstet Gynaec Br Emp* 57:442, 1950
- 19) Sulman FG, Sulman E: *Increased gonadotropin production in a case of detachment of placenta due to placental hemangioma. J Obstet Gynaec Br Emp* 56:1033, 1949
- 20) Myenberg H: *Über Hämangiomatosis diffusa placentae. Beitr Pathol Anat Allg Pathol* 70:510, 1922 (cited by Benirschke and Driscoll, 1974)
- 21) Hörmann G: *Zur Systematik einer Pathologie der menschlichen Placenta. Arch Gynäk* 191:297, 1958(Cited by Benirschke and Driscoll, 1974)
- 22) 강득용, 박기영, 임명덕, 전춘혜 : 태반혈관종. *대한병리학회지* 2:83, 1968
- 23) Strakosch W: *Über Chorioangiome. Geburtsh u Frauenh* 16:485, 1956 (cited by Benirschke and Driscoll, 1974)

= Abstract =

Multiple Chorioangiomas of Placenta

—A case report associated with repeated abortions and intrauterine fetal death—

Woo Hee Jung, M.D. and Dong Won Ahn, M.D.
Department of Pathology, Young Dong Hospital
College of Medicine, Yonsei University

Chorioangioma is the most common primary tumor of the placenta. It is widely accepted to be formed from hamartomatous proliferation of angioblastic cells in early placenta. According to groups who systematically examined the placentas with the greatest scrutiny, the incidence of chorioangioma is 1~1.2% of all placentas examined. The clinical implication of chorioangioma has been emphasized due to its high association with hyd-

ramnios, antepartum and postpartum hemorrhage, premature onset of labor, or intrauterine fetal distress or death.

The authors experienced a case of a 38-year old multigravida who had undergone 4 consecutive spontaneous abortions. The fifth pregnancy was carried to 35 weeks whereupon a dead fetus was

delivered. The placenta was enlarged (950 gm) with multiple protruding nodules into the fetal surface. Microscopically the nodule was composed of many villous structures lined by chorionic epithelium. Within these structures was proliferation of endothelial lined capillaries some of which demonstrated ectatic change.