

태아를 동반한 포상기태

— 유세포추정과 염색체검사를 이용하여 핵 DNA 배수성 분석을 시행한 3증례 보고 —

차 병원 해부병리과, 산부인과* 및 방사선과**, 연세대학교 의과대학 병리학교실**

김 규 래·최 동 희*·정 우 희***
박 용 현**·안 명 옥*·차 선 희*

Hydatidiform Mole with a Coexisting Fetus

— Report of three cases with nuclear DNA ploidy analysis by flow cytometry or chromosomal analysis —

Kyu Rae Kim, M.D., Dong Hee Choi*, M.D., Woo Hee Jung***, M.D.
Yong Hyun Park**, M.D., Myong Ock Ahn*, M.D. and Seon Hee Cha*, M.D.

Department of Pathology, Obstetric and Gynecology*, and Radiology**, Cha Women's Hospital
Department of Pathology, Yonsei University College of Medicine***

Three cases of hydatidiform mole with a coexisting fetus are described. In two cases, flow cytometric analysis of nuclear DNA content from paraffin-embedded, molar tissues and normal-appearing placental tissues showed diploid pattern. One case had karyotypes of 46, XX both in fetal skin fibroblasts and in molar tissues. Microscopically, the villi showed diffuse hydropic swelling with circumferential trophoblastic proliferations and consistent with the diagnosis of complete mole. Two patient had persistent gestational trophoblastic neoplasia on the follow-up. Therefore, in cases of hydatidiform mole with a coexisting fetus, dizygotic twin pregnancies composed of a normal pregnancy from one ovum and a complete molar pregnancy from the other ovum must be considered and the patients should be followed with serum β -hCG measurements (Korean J Pathol 1992; 26: 348~354)

Key Words: Hydatidiform mole, Coexisting fetus, Diploidy, Twin

서 론

1976년 Vassilakos등에 의해 완전 포상기태와 부분 포상기태의 차이점이 기술된 이후¹⁾ 이 두가지는 세포 유전학적으로 생성기전이 다를 뿐 아니라 조직학적 소견 및 임상경과가 매우 다른 질병으로 알려져 왔으며^{2,3)}, 이들의 조직학적 양상 및 세포 유전학적 차이를

이해하는 것은 이 두 질병이 지속성 혹은 악성 용모막 질환으로 진행되는 빈도에 있어 큰 차이를 보이기 때문에 매우 중요하다. 그 중 태아를 동반하는 포상기태는 단일 임신에서 발생한 부분 포상기태의 가능성과, 정상임신 및 완전포상기태 임신이 복합된 이란성 쌍태아 임신의 가능성을 고려해야 하겠으며, 후자의 경우는 완전포상기태의 임상경과를 취할 것으로 예상된다.

저자들은 최근 태아를 동반한 포상기태 3예를 경험하였는데, 이중 2예는 유세포 추정기에 의해 정상 태반조직과 포상기태 조직의 DNA량을 측정하여 각기 모두 이배수성의 DNA량을 가지는 것을 확인하였고, 1예는 태아피부와 포상기태 조직으로 염색체 검사를

접 수: 1992년 1월 6일, 게재승인: 1992년 3월 13일
주 소: 서울시 강남구 역삼동 650-9번지, 우편번호 135-081
차병원 해부병리과, 김규래

시행하여 각각에서 46, XX의 핵형을 얻어 이들의 세포 유전학적 측면이 삼배수성을 주로 보이는 부분 포상기태라기 보다는 이배수성의 완전포상기태와 가까웠으며, 3예 모두 용모막의 조직학적 소견이 완전 포상기태의 양상을 나타내었다. 또한 그중 2예는 추적관찰 기간중 재발하여 정상임신과 완전 포상기태 임신이 병합된 쌍태아 임신으로 추정되었으나 국내문헌에는 이에 관한 기술을 찾아볼 수 없어 이들의 임상 및 병리학적 소견을 보고하는 바이다.

증 례

증 례 1.

환 자: 양○영, 20세, 미혼

현병력 및 주소: 임신 16주에 산전 초음파 소견상 직경 1 cm 크기의 태반내 혈종이 발견되어 추적관찰하던중 임신 22주에 태아발육지연과 함께 혈종의 크기가 증가하고 태아가 사망하여 유도 분만하였다.

월경력 및 산과력: 초경은 13세에 있었으며, 주기는 불규칙적이었고 이전에 임신 혹은 유산의 경험은 없었다.

기왕력 및 가족력: 특이 사항 없음.

입원당시 소견: 임신 16주에 처음 내원당시 전신상태는 양호하였으며, 혈압은 90/60 mmHg로 약간 낮았으나, 혈액검사, 소견검사 소견은 정상이었다. 초음파 검사상 태아는 15주의 발육상태를 보였으며 자궁후벽에 위치한 태반내에서 1.1 cm 크기의 혈종으로 생각되는 비정상 음영이 관찰되었다. 임신 22주에 2차 내원시 초음파소견에서 혈종으로 생각되는 음영은 직경 4.5 cm로 커지고, 동시에 자궁내 태아사망이 관찰되었다.

태아 및 태반의 부검소견: 태아의 몸무게는 295

gm, 신장은 25 cm로 약 16주 정도의 발육 상태를 나타내었다. 외견상 두경부, 사지등에 선천성 기형을 의심할 만한 소견은 관찰되지 않았으며, 외부생식기도 정상이었다. 부검소견상 우측 폐장의 분엽이 4개, 좌측 폐장은 분엽상이 없이 전체가 하나로 이루어져 있었으며 그외 내부장기에서 이상소견은 관찰되지 않았다. 태반의 무게는 245 gm, 크기는 15×13×2.5 cm으로 모체면의 중앙부위에 장경 5 cm의 혈종이 관찰되었는데 이는 태아면에서 모체면에서 이르는 전층을 차지하고 있었으며, 태반의 가장자리에는 출혈과 함께 수포성 조직으로 구성된 포상기태의 소견이 관찰되었다(Fig. 1). 이 혈종은 태반 가장자리의 포상기태 조직과 연결되어 있었으며 정상 태반과의 경계는 매우 명확하였다.

조직학적 소견: 태반 가장 자리의 수포성 조직은 조직소견상 내부에 큰 수조형 공간(cistern)의 형성 및 부종을 동반하며 중등도의 영양막세포의 증식을 보이는 용모로 구성되어 있었고(Fig. 2), 부분포상기태의 소견으로 생각되는 용모 윤곽의 조개화 소견(scalloping)이나 영양막세포 붕괴 등은 관찰되지 않았다. 이에 반해 정상부위의 태반은 정상 임신 중기의 용모의 소견을 보였다.

유세포분석기에 의한 DNA량 측정: 파라핀에 포매된 정상 태반조직과 포상기태조직을 Hedley등⁴⁾의 방법에 따라 단일세포부유액을 만든 후 propidium iodide로 염색하여 EPICS(Coulter Electronics) 유세포분석기를 이용하여 DNA ploidy를 측정하였다. 10,000개 이상의 세포의 DNA량을 측정하여 histogram을 얻고, 내부기준은 파라핀에 포매된 정상 림프구의 이배수성 Go/G₁ peak를 이용하였다. 그 결과 정상태반조직과 포상기태조직에서 모두 이배수성 peak 한개만이 관찰되었다(Fig. 3).

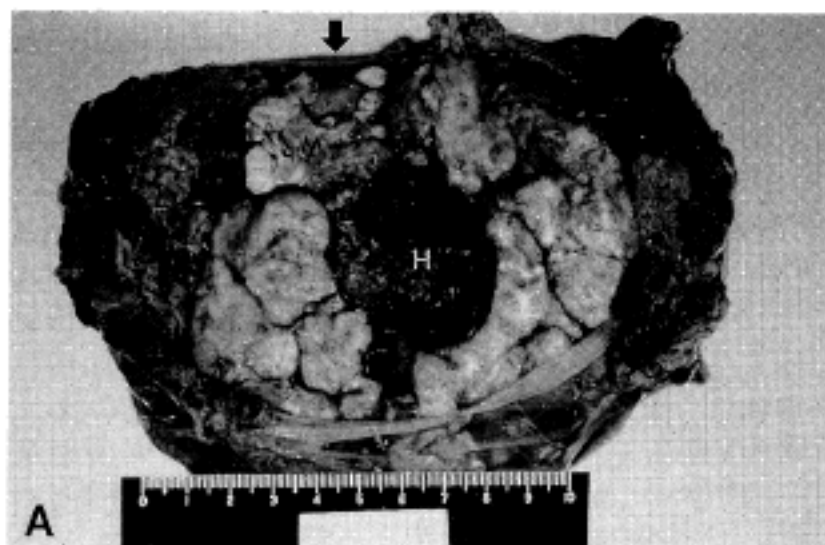


Fig. 1A & 1B. Case 1. Hydatidiform changes at margin of the placenta(M, →), and hematoma(H) in the center (1A). Close up view of the placental margin showing multiple molar vesicles(1B). Period of gestation 22 weeks at the time of delivery.

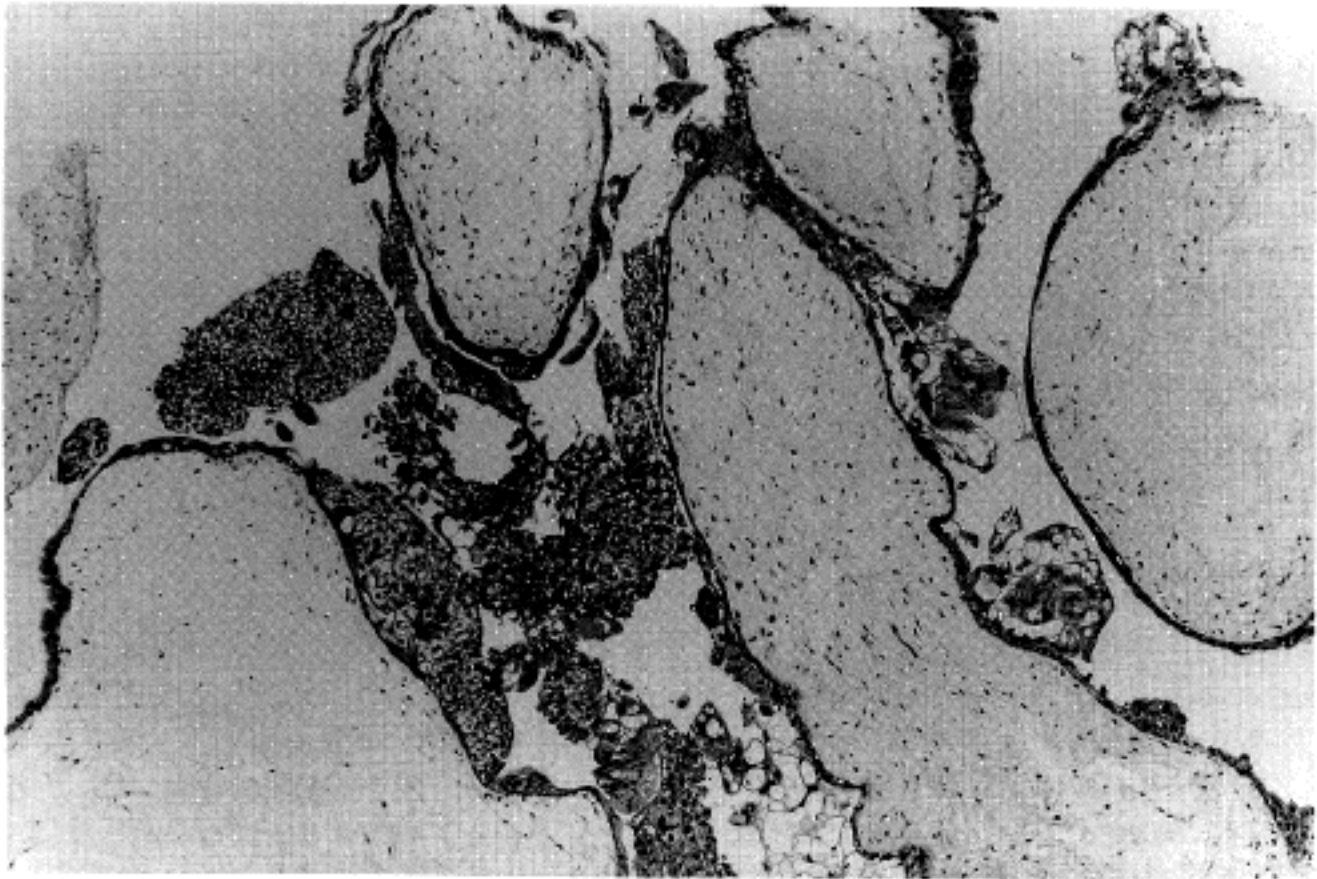


Fig. 2. Photomicrograph of hydatidiform molar tissue. Note avascular chorionic villi with moderate trophoblastic hyperplasia.

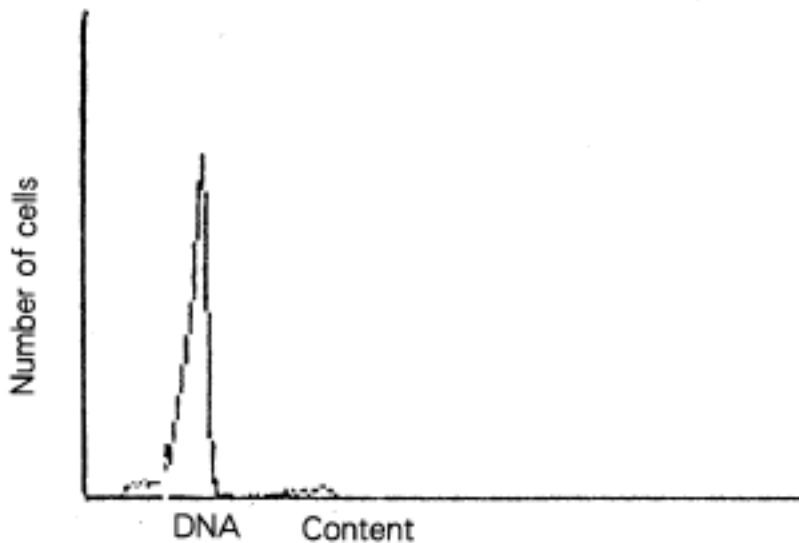


Fig. 3. DNA histogram obtained from paraffin-embedded molar tissue of case 1 showing a single diploid G₀/G₁ peak.

임상경과: 분만 4주후에 측정된 혈중 β -hCG치는 574.8 mIU/ml였고, 5주후에 199.4 mIU/ml, 7주후에 71.4 mIU/ml, 9주후에 29.3 mIU/ml, 10주후에 17.45 mIU/ml로 느리게 감소하다가 11주후에는 다시 95.9 mIU/ml로 증가하였고, 12주후에 28 mIU/ml, 13주후에 24 mIU/ml에 머물러 있었다. 환자는 그후 내원하지 않아서 혈중 β -hCG에 의한 추적관찰은 할 수 없었으나, 6개월후 다시 임신의 증상을 느끼

고 개인 산부인과 병원에서 계류유산의 진단하에 소파수술을 받았다고 하며 이때 조직검사는 실시하지 않았다.

증 례 2.

환 자: 전○숙, 28세, 주부

가족력 및 과거력: 특이 사항 없음.

월경력 및 산과력: 임신전 월경은 규칙적이었으며, 양은 중등도였음. 결혼후 2회의 인공유산과 1회의 자연유산을 경험한 적이 있고 분만의 경험은 없었다.

현병력: 임신 26주에 내원 1일전부터 시작된 질출혈을 주소로 내원하였다. 임신후 특별한 증상은 느끼지 못하였다.

입원시 관찰소견: 전신상태는 양호하였으며, 내진소견상 자궁경구는 닫혀있었고, 양수로 생각되는 혈성액체가 소량 흘러나왔다. 초음파 소견상 태아는 두정위로 대횡경(biparietal diameter)은 5.6 cm이었으며, 자궁의 전벽에 태반과 분리된 비정상종괴가 관찰되었고, 양쪽 난소에는 황체성 포막낭(theca lutein cyst)이 관찰되었다. 검사소견상 혈색소가 8.7 g/dl, 헤마토크리트는 26%이었으며, 환자는 입원후 질출혈이 증가하여 조기태반 박리의 임상 진단하에 자궁절개술을 시행하였다. 이때 몸무게 535 gm의 태아와 정상태반 그리고 약 600 gm의 포상기태 조직을 박리하였으며 태아는 분만 후 곧 사망하였다.

태아 및 태반의 부검소견: 부검결과 태아는 몸무게

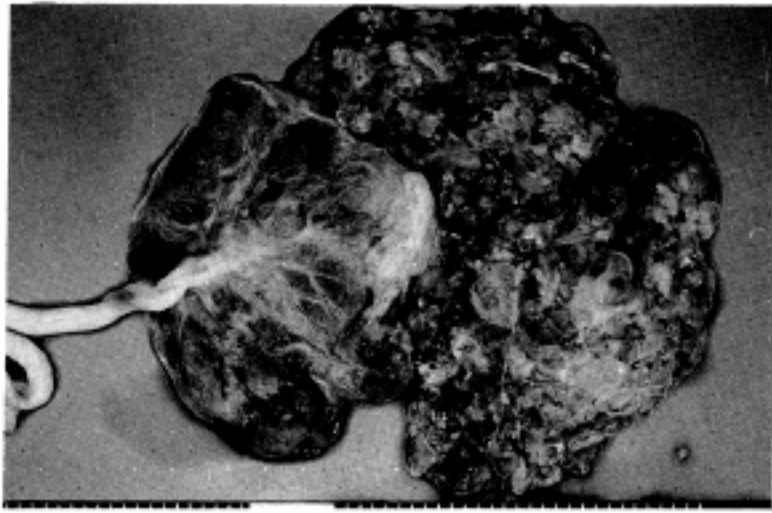


Fig. 4. Case 2. Normal 180 gm placenta and separate 600 gm molar placenta. Period of gestation 26 weeks at the time of delivery.



Fig. 5. Case 3. A disrupted fetus and separate hydatidiform mole. Period of gestation 10^{w5} weeks at the time of ultrasonography-guided evacuation.

535 gm, 신장 29.5 cm로 심한 발육지연의 상태를 보였으나 그의 외형이나 내부장기에서 선천성 기형등 이상 소견은 발견할 수 없었다. 정상으로 보이는 태반은 15×15×3 cm, 무게 180 gm으로 제대는 중앙부위에 위치하였으며 절단면에도 아무런 이상소견을 발견할 수 없었다. 이와 분리된 포상기태 조직은 16×15×5 cm으로 다양한 크기의 수포성 조직으로 구성되어 있었다(Fig. 4).

조직학적 소견: 포상기태 조직은 중등도의 영양막세포의 증식을 보이는 부종성 용모로 구성되어 있었으며 부분 포상기태에서 관찰되는 정상적인 모양과 크기를 가지는 용모의 혼합, 용모 윤곽의 조개화 소견, 용모 기질내 영양막 세포의 붕입은 관찰되지 않았다.

유세포분석기에 의한 DNA량 측정: 파라핀에 포매된 정상태반조직의 DNA ploidy는 증례 1과 마찬가지로 모두 G₀/G₁ 단일 peak를 보이는 이배수성이었다.

임상경과: 분만 2일후 측정된 혈중 β-hCG는 264708 mIU/ml이었으며, 환자는 그후 내원하지 않아 혈중 β-hCG의 측정을 할 수 없었다. 퇴원 4개월후 환자는 6주간의 무월경을 주소로 다시 내원하였는데, 초음파 소견상 자궁내강 안에 다양한 크기의 낭포성 조직이 차있어 완전포상기태로 진단하였으며 이때 혈중 β-hCG치는 1065 mIU/ml이었다. 환자는 그후 약물요법을 위해 전원하여 추후관찰은 할 수 없었다.

증례 3.

환자: 탄○영, 34세, 주부

월경력 및 과거산과력: 초경은 14세에 있었으며 월경주기는 30일로 양은 중등도였고 월경통은 없었다. 결혼후 6년간 임신한 적이 없었으며 자궁내막검사 및 부강경검사 소견은 정상이었다.

가족력: 남편의 정액검사 결과 무정자증이었으며, 신체는 외형상 환관형이었고 음모가 적었으며 고환은 2~3 cc 정도로 작아 성선기능 저하가 의심되었다. 남편의 혈중 prolactin은 13.66 ng/ml, LH는 17.84 mIU/ml로 정상이었으며, FSH는 54.32 mIU/ml로 증가되었으며 testosterone은 2.84 ng/ml로 감소되었다. 염색체 검사결과 47, XXY/48, XXXY의 모자이크형 Klinefelter 증후군으로 진단하였다.

현병력 및 주소: 환자는 남편의 불임으로 인해, 타인의 정자를 증여받고, 과배란 유도를 통해 얻은 환자의 난자를 체외수정 후 접합자를 난관내에 이식하는 ZIFT(zygote intrafallopian transfer) 방법에 의해 임신에 성공하였으며 초음파 소견상 임신 6주에 자궁저부에서 심박동을 가지는 정상 배아의 임신낭과, 이에 접한 크기가 작고 심박동이 보이지 않는 임신낭이 관찰되어 vanishing 쌍쌍아로 생각되었다. 1주후 후자의 임신낭은 빠른 속도로 성장하면서 다양한 크기의 다낭성 조직으로 이루어진 포상기태로 발전하였으며 임신 10주에는 크기가 9×6×7 cm에 달하여 자궁강내부를 채우고 있었다. 환자의 전신상태는 비교적 양호하였으나 정상배아에 비하여 포상기태의 성장 속도 및 자궁크기의 증가가 매우 빨라 악성 용모막 질환의 가능성을 배제하기 어려워 초음파 유도하에 정상태아와 포상기태 조직을 분리하여 소파수술을 시행하였다(Fig. 5).

조직학적 소견: 포상기태 조직은 중등도의 영양막세포의 증식을 보이는 부종성 용모로 이루어져 있었으며 용모 윤곽의 조개화 소견이나 영양막 세포 붕입은 관찰되지 않았다.

염색체 검사: 태아의 피부와 포상기태 조직에서 따로 염색체 검사를 실시하여 각각에서 46, XX의 정상 핵형의 결과를 얻었다(Fig. 6 A & B).

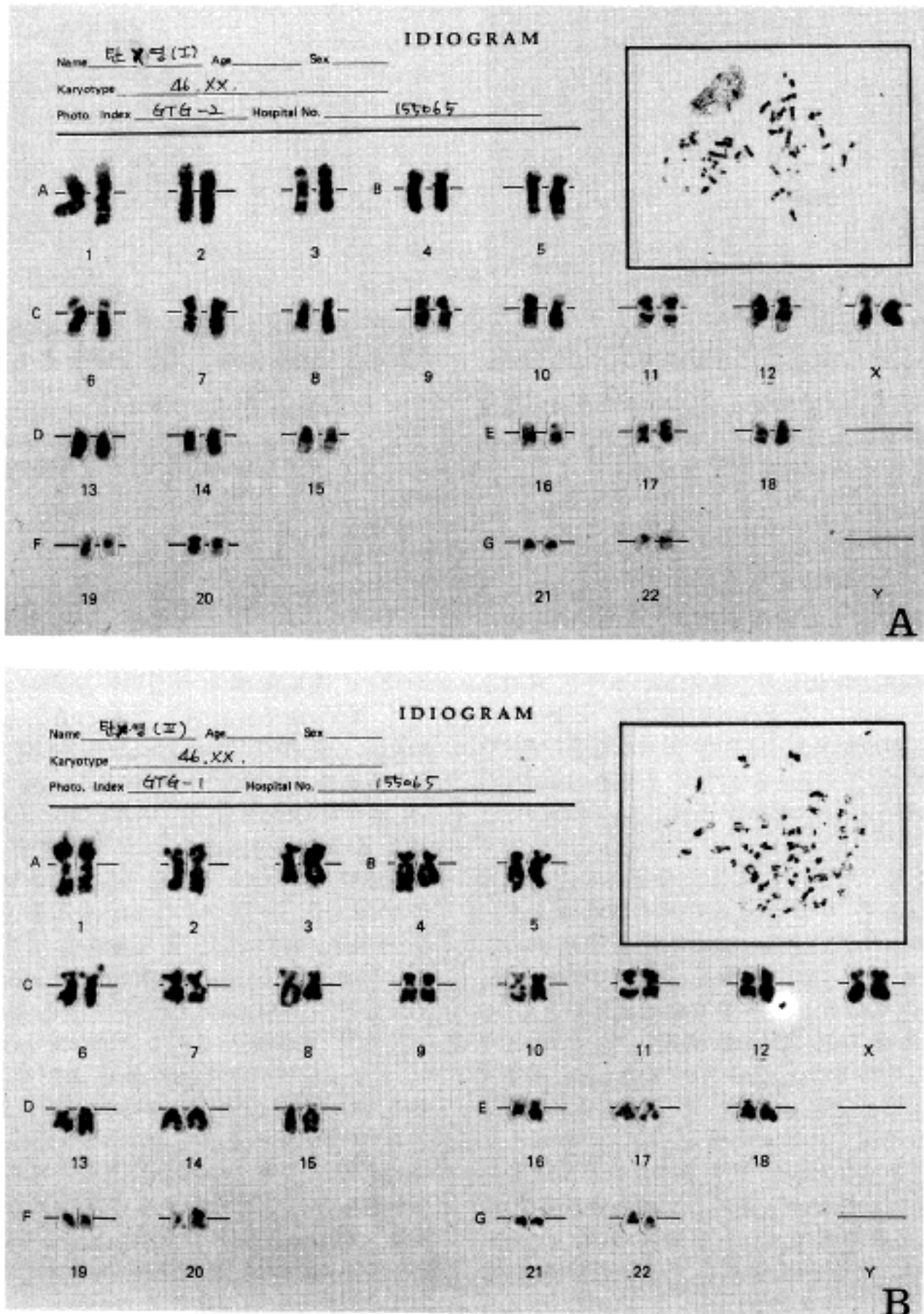


Fig. 6A & 6B. Karyotype of 46, XX both in cultured fetal skin fibroblasts(6A) and in cultured hydatidiform mole(6B).

임상경과: 수술직전 혈중 β -hCG치는 326095 mIU/ml 이상이였으나 수술후 3일에는 289890 mIU/ml로 감소하였고, 1주 간격으로 추적 관찰 결과 정상적인 속도로 감소하였으며 4주 후에 79.5 mIU/ml, 8주 후에는 7.7 mIU/ml로 정상 범위에 속하였으며, 수술

후 3개월째인 현재까지 정상 범위를 유지하고 있다.

고 찰

태아를 동반하는 포상기태는 1만~10만 임신중 1명

의 비율로 매우 드물게 보고되어 왔으며⁵⁻⁷⁾, 이 경우 태아의 생존 가능성 여부, 산모의 예후등은 포상기태의 병리학적 진단에 따라 큰 차이를 보인다^{1,2)}. 따라서 이와같은 예가 산전 초음파 검사등을 통하여 임신 중기 혹은 후반기에 발견되었을때, 재태기간에 관계없이 즉시 태아의 분만과 더불어 포상기태의 소파술을 시행할 것인지, 혹은 태아의 장기가 성숙하여 출생 후 생존할 수 있을때까지 포상기태를 관찰하며 기다릴것인지를 결정하는 것은 매우 중요하고 어려운 과제이다^{5,6)}.

1982년 Fisher등⁸⁾이 태아를 동반한 포상기태에서 포상기태조직과 태아양막세포의 핵형이 46, XX와 46, XY로 서로 다른 것을 발견하기 전까지, 태아를 동반하는 포상기태는 부분포상기태로 생각하였고^{1,9)}, 이 경우의 태아는 삼배수성을 비롯한 다양한 염색체 이상 및 여러 기관의 선천성 기형의 동반이 예상되며 10주 이전에 대부분 생명력을 소실하는 등⁹⁾ 생존 가능성이 적어 발견되는 즉시 치료하는 것을 원칙으로 하였다. 그러나 이에 앞서 Beischer⁷⁾, Chamberlain¹⁰⁾은 태아를 동반하는 포상기태중 아기가 기형이나 사망 없이 건강하게 태어난 예를 보고한 바 있고, 이와 같은 예들은 최근까지의 문헌 보고에서도 다수 찾아볼 수 있어^{11,12)} 이들이 삼배수성을 주로 보이는 부분포상기태와는 다른 양상을 보였으며, 건강한 아기를 분만 한 산모에서는 포상기태가 악성 용모막 질환으로 진행한 예가 12%에 달한다는 보고도 있어¹²⁻¹⁴⁾, 태아를 동반하는 포상기태의 임상경과는 완전포상기태와 유사함을 알 수 있었다. 이에 Fisher등⁸⁾은 태아를 동반한 포상기태에서 포상기태 조직의 염색체 다형중(chromosome polymorphism)을 부모의 염색체와 비교함으로써, 이들이 'androgenesis'에 의해 발생한 완전포상기태임을 증명하였고, 이때 동반된 정상태반의 양막세포는 양 부모의 염색체를 절반씩 가진 정상세포로 이루어져, 이들이 정상임신과 androgenesis에 의한 완전포상기태 임신이 복합된 이란성 쌍태아 임신임을 증명하였다. 이 경우 태아는 정상 발육이 가능하나, 이와 동반된 포상기태는 완전포상기태로서 악성 용모막 질환으로 진행될 위험성이 뒤따른다. Khoo등¹²⁾은 이때 양수천자에 의한 염색체 핵형분석 및 양수내 태아 단백질의 측정이 필요하다고 하였는데 이도 역시 태아의 염색체 핵형 및 성별에 따라 부분 포상기태와 완전포상기태를 구분하려는 의도일뿐, 완전 포상기태중 어떠한 예가 악성 용모막 질환으로 진행되는가에 관하여는 아직 확실하게 알려진 바가 없다. 일반적으로는 46, XY 포상기태가 46, XX 포상기태에 비해 악성 용모막 질환으로의 진행 빈도가 높은 것으로 알려져 있으며¹⁵⁾, Khoo등¹²⁾은 동반된 태아의 성별이 남아였던 8예 중에서만 3예가 악성 용모막 질환으로 진행하였다고 보고하였고, 그 3예는 모두 포상기태 조직이 정상태반으로 부터 완전히 분리되어 있었음을 관찰하여 악성용모막 질환으로의 진행을 예견하는데는 초음파상의

태반소견, 태아의 성별 및 포상기태 조직의 염색체 분석이 중요함을 강조하였다. 그러나 Cal-len등¹⁷⁾은 정상 46, XX 신생아에 수반된 태반조직이 46, XX/69, XXY 모자이크 염색체형을 가진 1예를 보고하면서 이들의 태반소견 및 염색체 분석 결과가 vanishing 쌍생아임을 의미한다고 하여, 본 증례 1에서와 같이 정상태반과 포상기태 조직이 분리되어 있지 않고 태반의 내부에 부분적으로만 포상기태의 소견이 관찰되는 경우에 있어서도 완전포상기태의 가능성을 배제할 수는 없다.

핵형분석을 위하여는 정상태반, 태아피부, 혹은 제대혈액등 태아조직과 포상기태에서 따로 검체를 채취하는 것이 중요한데, 증례 3의 경우에는 염색체 검사를 태아피부와 포상기태에서 따로 실시하였으나 모두 46, XX의 핵형을 나타내어 쌍태아 임신의 유전학적 증명은 할 수 없었다. 일반적으로 포상기태 조직은 인공배지에서 매우 느린 속도로 분열하여 핵형 분석이 어려우며 androgenesis를 확인하려면 Giemsa 염색 이외에 NOR(nucleolar organizer region)염색, 제한단편길이 다형중(restriction fragment length polymorphism)등 분자생물학적 방법의 이용이 필요하므로 반드시 조직을 동결하여 보관할 필요가 있다.

Lage등¹⁶⁾은 부분포상기태와 완전포상기태의 구분에 유세포 측정기에 의한 DNA양 분석의 유용성을 기술한 바 있어, 본 증례중 염색체 검사를 사전에 시행하지 못한 2예의 파라핀에 포매된 정상 태반조직과 포상기태 조직을 이용하여 DNA량을 분석한 결과 각각에서 모두 diploid histogram을 얻어, 삼배수성을 주로 보이는 부분 포상기태의 가능성 보다는 완전포상기태의 소견에 가까웠다. 그러나 부분포상기태 중 이배수성의 DNA량을 가지는 예도 다양한 비율로 보고되어¹⁸⁾, DNA량 만으로는 이 두가지를 구분할 수 없고 반드시 조직학적 소견이 뒷받침되어야 한다.

결론적으로 태아를 동반하는 포상기태인 경우에는 정상임신과 완전포상기태 임신이 복합된 쌍태아 임신의 가능성을 정확히 가려 진단하는 것이 중요하며, 이때에는 지속성 혹은 악성 용모막 질환으로의 진행 가능성을 고려하여, 즉시 분만을 유도해야 하겠으며 본 증례 3에서와 같이 환자가 임신을 지속하기를 원하는 경우에는 초음파 소견, 태아의 성별, 포상기태의 핵형 분석, 혈중 hCG의 상승속도등을 면밀히 추적관찰하면서 분만 시기를 결정하여야 할 것으로 생각된다.

참 고 문 헌

- 1) Vassilakos P, Riotton G, Kajji T. *Hydatidiform mole: two entities. A morphologic and cytogenetic study with some clinical considerations. Am J Obstet Gynecol* 1977; 127: 167-70.
- 2) Kurman RJ. *Blaustein's pathology of the female gen-*

- ital tract. New York, 3rd ed. Springer-Verlag, 1987: 836-57.
- 3) Benirschke K, Kaufmann P. *Pathology of the human placenta*. 2nd ed. New York, Springer-Verlag, 1990: 782-815.
 - 4) Hedley DW, Friedlander ML, Taylor IW. *Application of DNA flow cytometry to paraffin-embedded archival material for the study of aneuploidy and its clinical significance*. *Cytometry* 1985; 6: 327-33.
 - 5) Cunningham MC, Walls WJ, Burke MF. *Grey scale ultrasonography in the diagnosis of hydatidiform mole with coexistent fetus*. *Brit J Obstet Gynecol* 1977; 84: 73-5.
 - 6) Yee B, Tu B, Platt LD. *Coexisting hydatidiform mole with a live fetus presenting as a placenta previa on ultrasound*. *Am J Obstet Gynecol* 1982; 144: 726-8.
 - 7) Beischer NA. *Hydatidiform mole with coexistent foetus*. *J Obstet Gynaecol Brit Cwlth* 1961; 68: 231-7.
 - 8) Fisher RA, Sheppard DM, Lawler SD. *Twin pregnancy with complete hydatidiform mole(46, XX) and fetus(46, XY): genetic origin proved by analysis of chromosome polymorphisms*. *Br Med J* 1982; 284: 1218-20.
 - 9) Szulman A, Philippe E, Boue J, Boue A. *Human triploidy: Association with partial hydatidiform moles and nonmolar conceptus*. *Hum Pathol* 1981; 12: 1016-21.
 - 10) Chamberlain G. *Hydatidiform mole in twin pregnancy*. *Am J Obstet Gynecol* 1963; 87: 140-2.
 - 11) Suzuki M, Matsunobu A, Wakita K, Nishijima M, Osanai K. *Hydatidiform mole with a surviving co-existing fetus*. *Obstet Gynecol* 1980; 56: 384-8.
 - 12) Khoo SK, Monks PL, Davies NT. *Hydatidiform mole coexisting with a live fetus: A dilemma of management. A recent review(1965-1985) and report of 2 new cases*. *Aust NZ J Obstet Gynecol* 1986; 26: 129-35.
 - 13) Beischer NA. *Hydatidiform mole with coexistent foetus*. *Aust NZ J Obstet Gynecol* 1966; 6: 127-41.
 - 14) Hohe PT, Cochrane CR, Gmelich JT, Austin JA. *Coexistent trophoblastic tumor and viable pregnancy*. *Obstet Gynecol* 1971; 81: 899-904.
 - 15) Surti U, Szulman AE, O'Brien SO. *Dispermic origin and clinical outcome of three complete hydatidiform moles with 46, XY karyotype*. *Am J Obstet Gynecol* 1982; 144: 84-7.
 - 16) Lage JM, Driscoll SG, Yavner DL, Olivier AP, Mark SD, Weinberg DS. *Hydatidiform moles: Application of flow cytometry in diagnosis*. *Am J Clin Pathol* 1988; 89: 596-600.
 - 17) Callen DF, Fernandez H, Hull YZ, Svigos JM, Chambers HM, Sutherland GR. *A normal 46, XX infant with a 46, XX/69, XXY placenta: a major contribution to the placenta is from a resorbed twin*. *Prenat Diagn* 1991; 11: 437-42.
 - 18) Berkowitz RS, Goldstein DP, Bernstein MS. *Advances in management of partial molar pregnancy*. *Contemp Obstet Gynecol* 1991; 36: 33-44.