

## 태아수종 및 신생아 사망의 원인이 된 태반의 거대혈관종 1예 보고

차 병원 해부병리과, 소아과\*, 산부인과\*\*

김규래 · 이규형\* · 윤태기\*\* · 김인규\* · 차경섭\*\*

### Giant Chorioangioma of the Placenta as a Cause of Fetal Hydrops and Neonatal Death

— A case report —

Kyu Rae Kim, M.D., Kyu Hyung Lee, M.D.\*, Tae Ki Yoon, M.D.\*\*  
In Kyu Kim, M.D.\* and Kyung Sub Cha, M.D.\*\*

Departments of Pathology, Pediatrics\*, and Obstetrics and Gynecology\*\*, Cha Women's Hospital

We described a giant chorioangioma of the placenta that caused premature rupture of membranes at 31 weeks of gestation in a 31-year-old primiparous woman and a subsequent neonatal death of the baby.

The placental mass, weighing 820 gm and measuring 21.5×15×4.5 cm, was easily shelled out from a edematous 1280 gm-placenta. The mass had a thin fibrous capsule and a solid fibromatous appearance. The infant, weighed 2175 gm, appeared edematous on the whole body and had Apgar scores of 4 and 5 at 1 and 5 minutes respectively. The baby expired 4 days after birth due to high output cardiac failure and respiratory failure. Postmortem examination revealed markedly dilated umbilical vein, inferior vena cava and right atrium with patent foramen ovale, congestive hepatosplenomegaly, pulmonary hemorrhages, and meconium aspiration pneumonia. Microscopically, the mass revealed a variety of histologic patterns, reflecting entire spectrums of villous vasculogenesis from loose myxomatous connective tissue and undifferentiated hemangioblastic cell nests to well-developed capillaries with hematopoietic cells in the lumen. (Korean J Pathol 1992; 26: 524~529)

**Key Words:** Giant chorioangioma, Neonatal death, Premature rupture of membranes, Heart failure

### 서 론

혈관종은 태반에 발생하는 종양의 대부분을 차지하며, 그 발생빈도는 100 태반중 1예의 비율로 부터<sup>1)</sup> 50,000 태반중 1예의 비율에 이르기까지<sup>2)</sup> 보고자들마다 현격한 차이를 보이고 있다. 이와같이 발생빈도

의 큰 차이를 보이는 이유는 대부분의 혈관종이 크기가 작고 임신 경과에 큰 영향을 미치지 않아 발견되지 않은 예가 많았기 때문으로 생각되며, 최근에는 산전 초음파 검사나 산후 태반 검사로 작은 크기의 종괴까지 발견되어 그 비율이 상대적으로 증가된 듯하다. 이중 종괴로 인하여 임신경과에 이상을 초래하거나 태아 혹은 신생아에 치명적 영향을 미친 예들은 드물게 산발적인 영문 보고가 있을 뿐<sup>3,4)</sup>, 국내문헌에는 보고된 바 없다.

최근 저자들은 31세 초산부의 태반에 형성된 거대 혈관종이 태아수종 및 신생아 사망을 초래한 드문 예

접 수: 1992년 4월 17일, 게재승인: 1992년 6월 9일  
주 소: 서울 특별시 강남구 역삼동 650-9, 우편번호 135-081  
차병원 해부병리과, 김규래

를 경험하고 태반종양의 병리조직학적 소견이 용보 혈관의 발생과정을 단계적으로 잘 나타내고 있는 점이 흉터와 이의 부검소견 및 태반소견을 기술하는 바이다.

### 증 례

산모는 31세  $G_2P_1D_0A_1$ 의 초산부로 임신 31주에 조기양막 파열을 주소로 하여 본원에 처음 내원하였다. 가족력에는 특이 사항이 없었으며 월경주기는 불규칙한 편이었다. 임신 초기에 개인 병원에서 1회의 산전 초음파 검사를 받은 적이 있으나, 특이한 소견은 없었다고 하며 임신 26주경에 가벼운 교통사고를 당한 적이 있으나 그 당시 태아심박동이 정상이었으며, 산모에게 큰 부상이 없어 그 이상의 검사는 받지 않았다. 내원 당시 산모는 혈압 120/80 mmHg, 맥박은 분당 85회이었고 혈색소 10.9 g/dl, 적혈구 용적치 32.9%였다. 진찰 소견상 자궁은 만삭의 크기로 임신 주수에 비해 커져 있었고, 자궁구는 닫혀 있었으며, 내아심박동은 정상 범위였다. 초음파 소견상 태아는 등위로 위치하였으며 태아경은 8.0 cm였고 자궁 전벽에 위치한 태반에 인접하여 태반 실질과 경계가 분명한 장경 21 cm의 고형성 종괴가 발견되었다. 환자는 입원후 태아 감시 장치로 관찰하며 유도 분만을 시도하였으나, 도중에 태아의 심박동이 감소하기 시작하여 제왕 절개술을 시행하였다. 수술시 종괴는 태반으로부터 쉽게 박리되었고 용보혈관에 의해 태아면의 제대 근처에 매달려 있었다.

### 임상경과

환아는 체중 2175 gm의 여아로서 출생 당시 Apgar 점수는 1분에 4점, 5분에 5점이었으며 호흡곤란과 청색증으로 기도내 삽관후 기계적 환기요법을 시행하였다. 이하적 소견상 전신 부종을 보였으며 흉부는 호흡시 흉골하 환골이 있었고 기전 호흡음과 수포음이 청진되었다. 심박동은 규칙적이며 잡음은 들리지 않았다. 복부는 복수로 인하여 팽창되어 있었고 사지는 함몰성 부종(pitting edema)을 보였다.

말초혈액검사상 혈색소 5.5 gm/dl, 적혈구 용적치 18.3%, 백혈구  $26,500/mm^3$ , 혈소판  $78,000/mm^3$ 였으며 동맥혈 가스검사상 pH 7.18,  $PCO_2$  79.6 mmHg,  $PO_2$  50.8 mmHg로 호흡성 신랄증을 보였다. 간기능 검사상 AST 143 IU/l, ALT 14 IU/l, 총 단백당 2.1 g/dl, 알부민 1.3 g/dl이었고 복수 천자액은 장액성을 보이면서 단백 0.97 g/dl, 당 77 mg/dl, 적혈구  $71,500/mm^3$ , 백혈구  $3,500/mm^3$ 이었다. 혈액, 대변, 소변, 복수 배양검사서 균은 배양되지 않았다.

태아의 염색체 검사 결과는 46, XX로 정상이었으며 흉부 X-선 소견상 전폐에 혼탁한 음영과 함께 좌

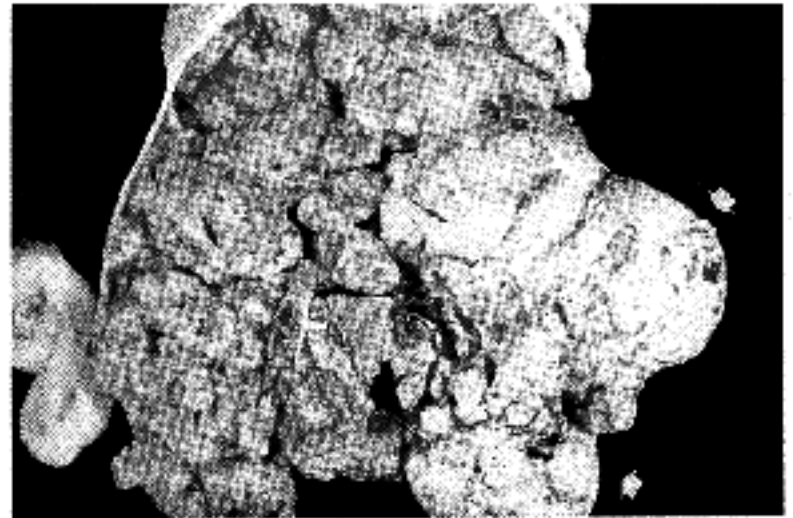


Fig. 1. Maternal surface of the placenta showing a huge, well-demarcated, lobated firm mass(→).

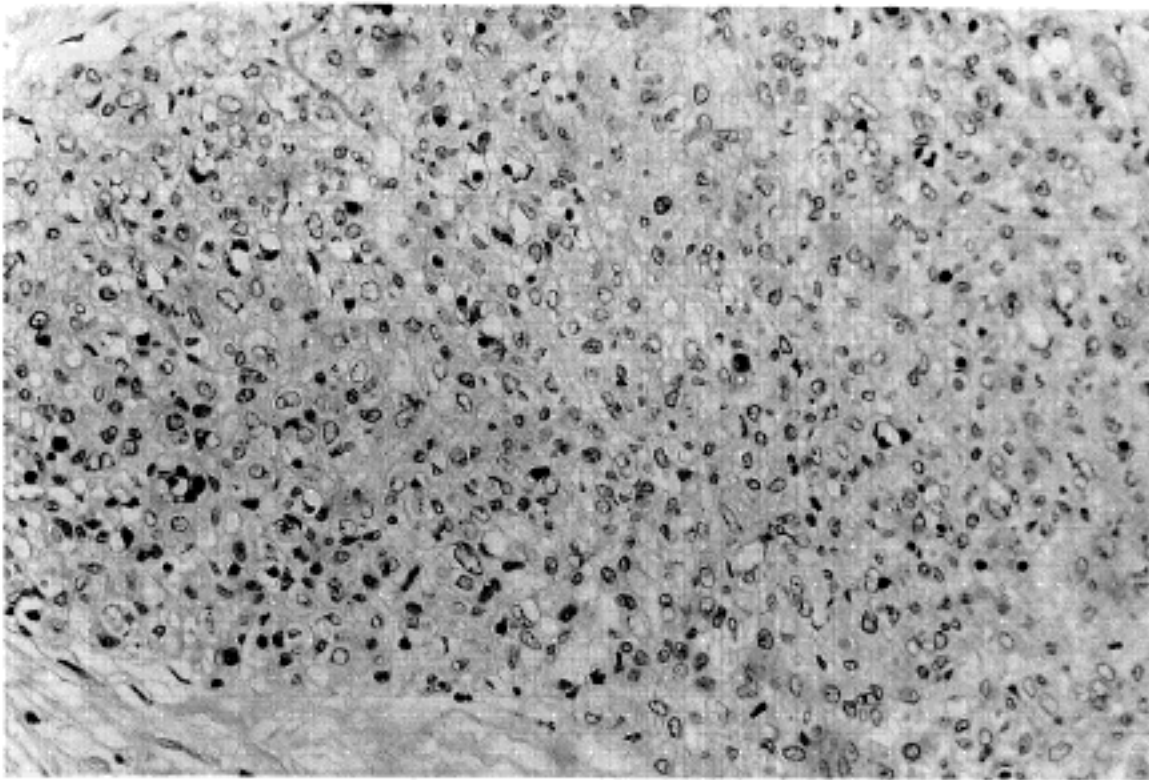


Fig. 2. The cut surface of the chorioangioma showing yellowish brown, solid appearance with fibromatous consistency. The mass was bulging on the amniochorionic membranes(→) of the fetal surface.

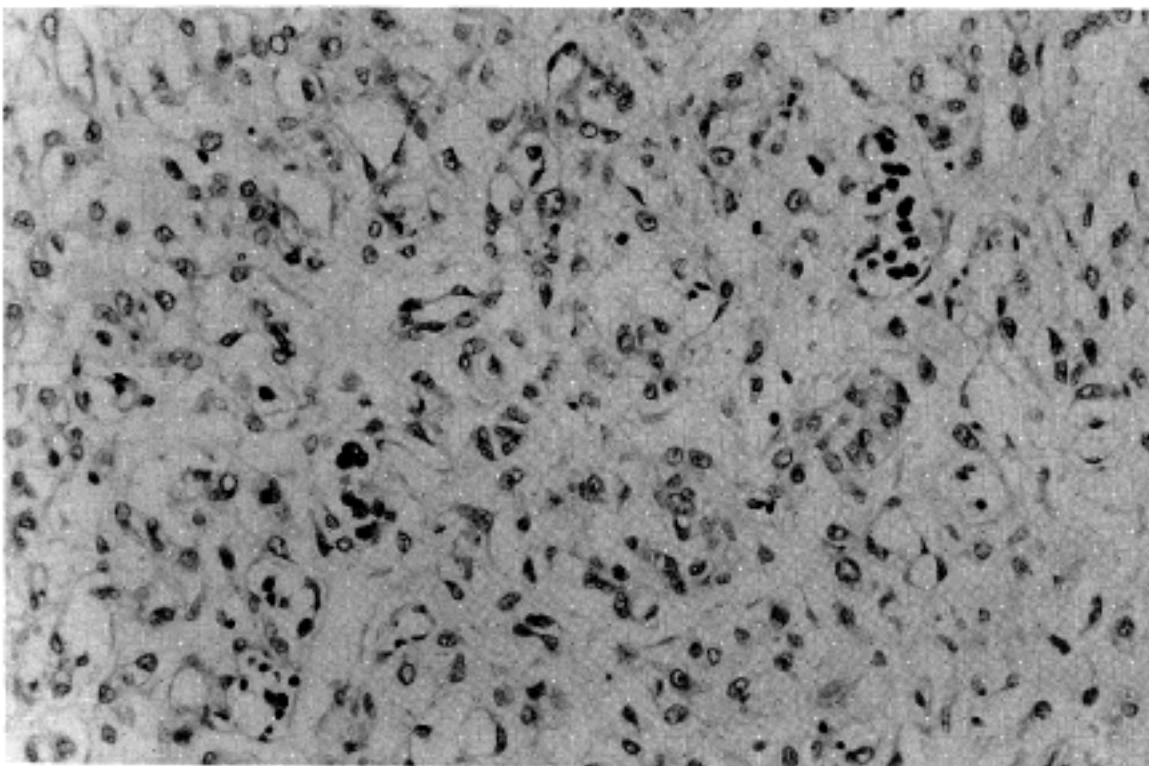
하부종을 보이고 있었다. 기계적 인공환기 및 복수천자, 부분적 교환수혈, digitalization 등 보존적 치료를 시행하였으나 생후 4일째 울혈성 심부전과 네부전으로 사망하였다.

### 태반소견

이 종괴는 태반내부에서 정상태반과 인접하여 위치하면서(Fig. 1) 태이면의 양수막에 의해 덮여 있었으며, 태이면 위로 융기되어 성장하는 양성이었다(Fig. 2). 태반 종괴는 크기  $21.5 \times 15 \times 4.5$  cm, 무게 820 gm의 단단한 고형성 조직으로 외면은 얇은 섬유성 피막에 의해 잘 둘러 싸여 있었으며 여러 개의 분엽으로 나뉘어져 있었고 외면에서 국소적인 석회화 부위를 볼 수 있었다. 절단면은 지궁근종이나 난소 섬유종과 매우 유사한 소견으로 전체가 황회색 혹은 황갈색을 띠



**Fig. 3a.** Photomicrograph showing solid or trabecular arrangement of hemangioblastic cells, in which lumen formation takes place.



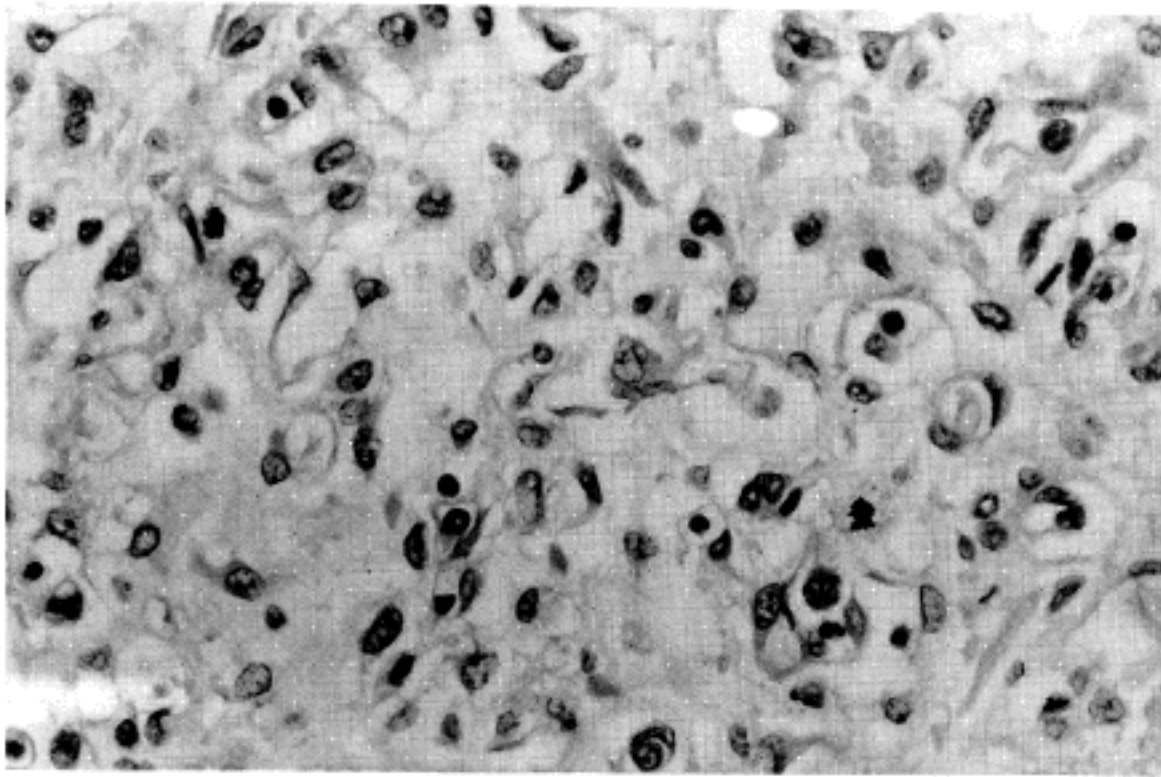
**Fig. 3b.** Photomicrograph of the chorioangioma (vascular type) showing closely packed capillaries, some of which are filled with immature erythropoietic cells.

는 섬유성 조직으로 이루어져 있었으며, 종괴 내부에 출혈이나 괴사, 낭성 변화 혹은 그외 이차적 변성을 보이는 부분은 없었다(Fig. 2). 종괴를 제외한 나머지 태반 부위도 무게 1240 gm, 장경 24 cm, 두께 5 cm 로 크기가 매우 증가되어 있었으며 태반 실질은 전반적으로 창백한 분홍색을 띠었고 절단시 부종성 액체의 유출이 많았다(Fig. 1).

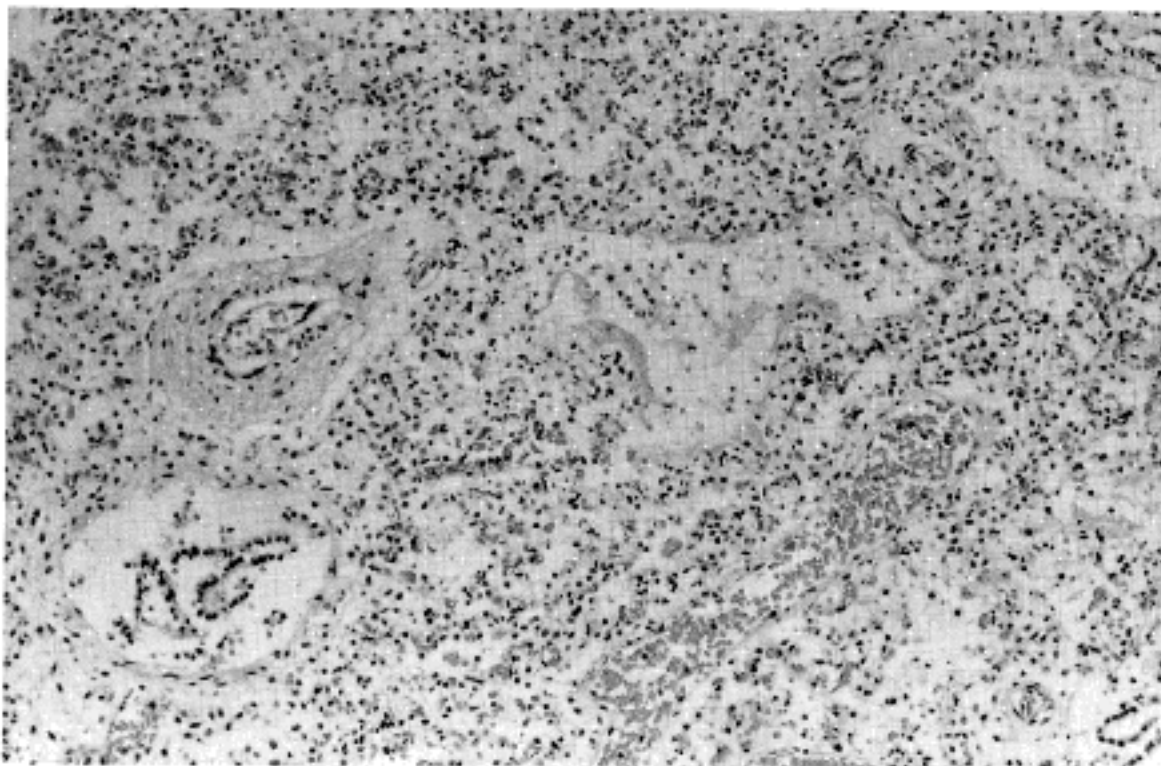
현미경적 소견상 종괴는 두꺼운 결체조직에 의해 여러개의 작은 소엽으로 나뉘어지는 양상으로 세포의 밀도가 적고 혈관형성이 미약하면서 느슨한 결체조직으로만 이루어진 부위와, 세포의 밀도가 높고 혈관형성

을 하지 않는 방추형 혹은 난원형의 미분화 세포가 판상으로 배열하거나 육주(trabeculae)모양을 형성하는 곳(Fig. 3a), 그리고 모세혈관의 형성이 현저한 부위(Fig. 3b)가 섞여 있거나 서로 이행하면서 종양을 구성하였다. 세포의 밀도가 비교적 높은 부위의 미분화 세포들은 세포질의 경계가 명확하고 세포질이 풍부하였으며 고배율 시야당 1개 혹은 2개의 세포분열을 보였다(Fig. 4). 이 세포 가운데에서 원시적 모세혈관의 형성이 시작되는 부위도 자주 관찰되었으며 모세혈관의 내강 안에는 많은 수의 미성숙 조혈세포들이 관찰되었다(Fig. 3a, 3b, 4).





**Fig. 4.** Transitional area of chorioangioma from immature cellular portions to mature vascular area. The vascular lumen is formed by fusion of intraendothelial vacuoles. Note mitotic figures in the immature mesenchymal cells.

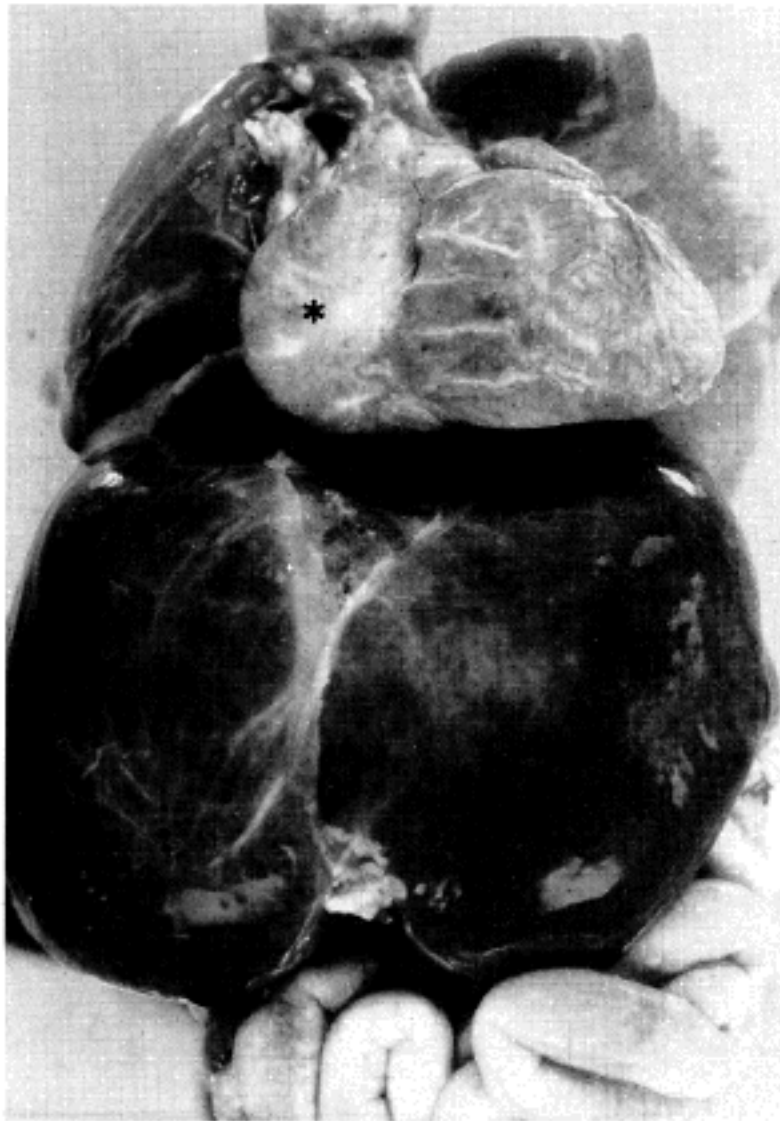


**Fig. 5.** Bronchioles and air spaces are filled with aspirated amniotic fluid debris, meconium or RBCs. Note the muscularized thick pulmonary arterioles.

**부검소견**

태아의 정둔장은 30.0 cm이었으나 두피의 부종을 감안할 때 약 32~33주에 해당하였고, 발길이는 65 mm로 약 33주에 가까운 발달을 보였으며, 체중은 2175 gm으로 정둔장에 비해 매우 증가되어 있었다<sup>5)</sup>. 전신적인 피부 및 피하조직의 부종으로 두위, 흉위 및 복위도 각각 31.5 cm, 28.5 cm 32.5 cm로 증가되어 있었고 함몰성 부종이 전신에서 관찰되었다. 그러나 외형상 선천성 기형을 의심할 만한 소견은 관찰되지 않았다.

**폐장:** 흉막강 내에는 약 30 cc의 장액성 액체가 고여 있었으며 양측 폐장은 정상적인 분엽을 형성하였다. 표면의 소수의 출혈성 반점과 함께 절단면은 양측 모두 적갈색으로 단단하였고 절단면에서 혈액성 액체의 유출을 볼 수 있었다. 현미경적 소견상 양측 폐장은 모두 소엽간 림프관의 확장과 혈관의 확장 및 울혈의 소견이 현저하였고 소엽내 동맥의 벽은 소동맥에 이르기까지 근육화로 인하여 매우 두꺼워져 있었다 (Fig. 5). 폐포들은 수축되어 있거나 부분적으로 확장되어 있었고 폐포내 출혈로 인해 적혈구로 차 있는 곳이 많았으며, 기도 및 폐포내에는 태변으로 생각되는



**Fig. 6.** Resected internal organs of the infant showing a markedly dilatated right atrium(\*) of the heart, enlarged liver and edematous bowel loops.

황색 혹은 황갈색의 물질이 내강에 가득 차있거나 폐포의 내면을 둘러싸고 있었고, 폐포간 중격과 폐포내에는 소수의 다형핵 백혈구의 침윤을 관찰할 수 있었다.

**심장:** 심막강내에는 약 15 cc 가량의 장애성 액체가 고여 있었으며, 대혈관의 위치는 정상이었고 동맥관의 직경은 4 mm로 열려 있었다. 심장은 전체 흉곽 직경의 2/3 이상을 차지하는 크기로 확장되어 있었으며 특히 우심방의 심한 확장을 보였다(Fig. 6). 심방 중격의 난원와는 직경 14×4 mm로 열려 있었으며 우심실 및 좌심실의 벽은 모두 7 mm의 두께로 비후되어 있었다. 제대정맥 및 하대정맥은 각각 6 mm, 18 mm의 직경으로 확장되고 벽이 비후되어 단단하게 느껴졌다.

**간장:** 간장 및 비장의 무게는 각각 195 gm과 10 gm으로 심한 간, 비 종대의 소견을 보였으며<sup>5)</sup> 간장의 절단면은 만성 울혈로 인한 전형적인 육두 간장의 소견을 잘 나타내었다. 현미경소견상 동양구조의 확장 및 울혈의 소견과 함께 중심정맥도 확장되고 섬유화로

인하여 벽이 두꺼워져 있었으며 여러부위에서 간세포의 출혈성 괴사와 간세포의 지방변성이 관찰되었다. 복강내에는 소량의 부종성 액체와 장벽의 전반적인 부종의 소견을 보였으며(Fig. 6), 그의 복부 장기들도 전반적인 울혈과 부종의 소견을 나타내었다.

**신장 및 비뇨기계:** 양측 신장의 무게는 정상이었으나 절단면은 울혈로 인해 암갈색을 띠었으며 현미경소견상 근위 세뇨관 세포의 풍선화 소견을 보였다. 방광의 크기는 정상이었으나 방광벽 주변 결체조직내에 심한 출혈의 소견을 보였다.

## 고 찰

태반의 혈관종은 1798년 John Clarke에 의해 처음으로 기술된 이후 조직학적 소견의 다양함으로 인하여 "fibroangiomyxoma", "fibroma" "hemangioendothelioblastoma" "harmartoma" "myxoma fibrosum chorii" "fibrosarcoma" 등 30 가지가 넘는 다양한 명칭으로 문헌에 기술되어 왔다<sup>2,6)</sup>. 그러나 전이성 암종, 태반의 기형종 및 이소성 조직등 매우 드물게 보고된 바 있는 몇가지 병변을 제외하고는 태반에 생긴 종양성 병변은 대부분 다양한 조직학적 변화를 나타내는 혈관종에 속한다. 이는 종양을 구성하는 세포의 분화 정도 및 종양의 이차적 변성에 따라, ① 확장된 모세혈관을 주성분으로 하며 간질 세포 성분이 매우 적어 통상의 혈관종과 마찬가지로 암적색을 띠는 혈관형 혈관종과, ② 혈관의 형성이 적은 대신 혈관내피세포 및 미분화 간질 세포 성분이 많아, 섬유종이나 근종과 유사한 황백색의 고형성 종괴를 이루는 세포형 혈관종, ③ 그리고 제대의 근처에 위치하여 wharton 젤리와 혼합을 보이거나 점액성 변성, 섬유소양 변성, 초자화, 괴사, 석회화 등의 종양내 이차적 세포변성이 많은 부분을 차지하는 반면 혈관의 형성은 미약한 퇴행형 혈관종으로 구분할 수 있는데<sup>2,6)</sup>, 후자의 두 경우에는 혈관종의 조직학적 진단이 쉽지 않은 경우도 있다. 또한 세포형 혈관종의 경우, 현미경적 소견상 세포분열수가 많고 세포의 밀도가 높아 혈관육종으로 진단된 종양도 있었으나<sup>7)</sup>, 분만후 산모 및 태아의 추적관찰에서 악성 종양의 임상적 증거가 없었으며 세포분열상은 배아형의 원시 융모막간질조직(chorionic mesenchyme)으로 부터 혈관내피세포 및 결체조직으로 분화하는 과정에서 빈번히 나타나므로<sup>8)</sup> 태반혈관종에서는 악성종양의 진단기준으로 생각할 수 없다<sup>6)</sup>.

본 종양의 조직학적 소견상 흥미로운 점은 종양의 다양한 조직학적 소견이 태아 융모 혈관의 발생과정을 단계적으로 잘 나타내고 있는 점이다. 태아 융모 혈관은 초기에 태아 융모의 원시간질조직으로부터 혈관모세포주(hemangioblastic cell cords)가 분화하면서 시작되고 그 후 혈관모세포주의 세포간 틈이 확장되고 세포질내 공포가 형성된 후 이들이 융합하여 모세혈관

의 내강이 형성되며, 동시에 이 세포들은 혈관내피세포 및 혈관주변세포로 분화하여 용모의 혈관이 형성되는데<sup>9)</sup>, 본 종양의 내부에서는 세포 밀도가 낮고 느슨한 미분화세포로 구성된 부위, 혈관모세포와 유사한 세포에서 원시 모세혈관의 형성이 시작되고 혈관 내강 안에 미성숙 조혈세포가 출현하는 부위(Fig. 3a), 그리고 혈관의 형성이 현저하여 분화가 성숙한 곳(Fig. 3b)에 이르기까지 혈관의 단계적 발생과정을 잘 관찰할 수 있었다. 따라서 태반 혈관종을 진정한 의미의 종양이 아닌 과오종으로 생각하는 견해도 있으나<sup>11)</sup>, 본 예에서와 같이 종괴내에서 영양아 세포를 비롯한 태반의 다른 성분의 증식이 없이 혈관형성 단계만이 나타나는 이 병변은 혈관종으로 불리워져야 타당하다고 생각된다.

이 종양의 임상적 영향은 대부분 종양의 크기와 비례하여 나타나며, 이는 크게 산모의 임신 경과에 미치는 영향과 태아 혹은 신생아에 미치는 영향으로 나눌 수 있다. 전자에 속하는 것으로는 양수과다증이 가장 빈번하고<sup>3, 4, 10, 11)</sup>, 그외 조기진통, 조기태반박리, 조기양막파열, 전치태반 및 임신중독증과 연관이 있는 것으로 보고된 바 있다<sup>10-12)</sup>. 태아에 나타나는 영향으로는 심부전, 태아발육지연, 태아부종, 빈혈, 혈소판감소, 저단백질 혈증, 범발성 혈관내 응고 등이 보고된 바 있는데<sup>10, 11)</sup>, 이들은 모두 혈액량의 증가로 인한 심부전의 이차적 결과로 생각되며, 본예와 같이 자궁내 태아 사망이나 신생아 사망을 일으킨 경우도 보고되어 있다<sup>3, 4, 11)</sup>. 본 예에서는 거대혈관종의 혈관내강안에서 형성된 혈액으로 인하여 제대정맥, 하대정맥이 비후되고 우심방이 확장된 소견을 보였으나, 태아의 정둔장과 대횡경으로 미루어 태아발육 지연의 소견은 없었고 장기의 성숙도 재태기간에 합당하였으므로 태아가 오랜 기간 동안 자궁내에서 만성 저산소증에 노출되었으리라고 생각되지는 않았으며 그 이유는 종양과 인접하여 정상기능을 가진 태반조직이 존재하여 이로 인해 혈액의 산소화 등 태반기능이 가능하였기 때문으로 추측된다. 또한 태아 심근이 비후된 소견으로 미루어 혈액의 증가로 인한 우심의 용적 과부하(volume overload)가 있었다고 하더라도 초기에는 심박출의 장애는 없었을 것이나 종괴의 크기가 증가함에 따라 우심의 용적 과부하가 점차 증가하여 심부전의 소견과 전신적인 부종이 나타난 것으로 생각된다.

저자들은 장경이 21.5 cm에 달하는 태반내의 종괴로 인하여 조기 양막파열 및 전신적 태아부종, 심부전,

폐출혈 및 태변흡인으로 인한 폐염을 유발한 태반 혈관종 1예를 경험하고, 이의 육안적 소견이 일반적인 혈관종의 양상과 달리, 섬유종이나 근종과 유사하였으며 현미경 소견상 빈번한 세포분열로 인해 악성종양을 의심하게 하였던 점이 흥미로와 이의 다양한 조직학적 소견 및 임상적 의의에 관하여 기술하는 바이다.

## 참 고 문 헌

- 1) Wallenburg HCS. *Chorioangioma of the placenta. Obstet Gynecol Surv* 1971; 26: 411-25.
- 2) Fox H. *Vascular tumors of the placenta. Obstet Gynecol Surv* 1967; 22: 697-711.
- 3) Arodi J, Auslender R, Weill AS, Abramovici H. *Giant chorioangioma of the placenta. Acta Obstet Gynecol Scand* 1985; 64: 91-2.
- 4) Burrows S, Gaines JL, Hughes FJ. *Giant chorioangioma. Am J Obstet Gynecol* 1973; 115: 579-80.
- 5) Wigglesworth JS. *Performance of the perinatal autopsy. In: Wigglesworth JS, Perinatal pathology, Philadelphia: W.B. Saunders, 1984; 28-30.*
- 6) Marchetti AA. *A consideration of certain types of benign tumors of the placenta. Surg Gynecol Obstet* 1939; 68: 733-43.
- 7) Cary WH. *Report of a well-authenticated case of sarcoma of the placenta. Am J Obstet* 1974; 69: 658-64.
- 8) Benirschke K, Kaufmann P. *Development and structure of fetal blood vessels. In: Benirschke K, Kaufmann P, Pathology of the human Placenta, 2nd ed. New York: Springer-Verlag, 1990: 55-60.*
- 9) Demir R, Kaufmann P, Castellucci M, Erben T, Kotowski A. *Fetal vasculogenesis and angiogenesis in human placental villi. Acta Anat* 1989; 136: 190-203.
- 10) Asadourian LA, Taylor HB. *Clinical significance of placental hemangiomas. Obstet Gynecol* 1968; 31: 551-5.
- 11) Benirschke K, Kaufmann P. *Benign tumors. In: Benirschke K, Kaufmann P, Pathology of the placenta, 2nd ed. New York: Springer-Verlag, 1990: 841-7.*
- 12) Heggtveit HA, de Carvalho R, Nuyens AJ. *Chorioangioma and toxemia of pregnancy. Am J Obstet Gynecol* 1965; 91: 291-2.