

자궁의 동정맥기형

- 1예 보고 -

가톨릭대학교 의과대학 임상병리학교실

권미선 · 강석진 · 김병기 · 김선무 · 심상인

Arteriovenous Malformation of the Uterus

- A case report -

Miseon Kwon, M.D., Seok Jin Kang, M.D., Byung Kee Kim, M.D.,
Sun Moo Kim, M.D. and Sang In Shim, M.D.

Department of Clinical Pathology, Catholic University Medical College

Arteriovenous malformation of the uterus is rarely encountered. It is potentially lethal because of profuse, uncontrollable bleeding at the time of diagnostic dilatation and curettage. To our knowledge, only 38 cases of localized uterine arteriovenous malformation have been reported in English and Korean literature.

Recently we experienced a case of uterine arteriovenous malformation in a 28-year-old multiparous woman. Under the clinical impression of uterine tumors or arteriovenous malformation, a total hysterectomy was done. Gross examination demonstrated a vascular nature of the mass in the posterior wall of the fundus. Microscopically, there was an ill-defined mass composed of numerous irregular, anastomosing large vessels with various diameters.

J Pathol 1996; 30: 943~946)

Key Words: Arteriovenous Malformation, Uterus

자궁의 동정맥기형은 매우 드문 질환으로 1926년 Dubreuil과 Loubat가 정맥류상동맥류(cirroid aneurysm)로 처음 기술한 이래 동정맥류, 무리동맥류(racemose aneurysm) 또는 해면혈관종으로도 기술되어 왔다.

으며,¹ 국내 보고 1예를 포함하여 문헌에 총 38예가 보고되어 있다^{2,3}. 과도한 자궁 출혈을 야기하는 다른 혼한 원인들과 달리 동정맥기형에서의 가능성 자궁 출혈은 소파술이 출혈을 더 악화시킬 수 있으므로 임상의에게는 정확한 진단이 요구된다^{2~4}. 또한 병리학적으로는 혈관종이나 혈관이 풍부한 자궁 근종과의 감별이 필요하다^{2,5}. 저자들은 최근 병리학적으로 매우 전형적인 소견을 보이는 자궁의 동정맥기형 1예를 경험하여 드문 질환으로 생각되어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

접수: 1996년 1월 26일, 계재승인: 1996년 5월 27일
주소: 서울시 서초구 반포동 505, 우편번호 137-040

강남성모병원 임상병리과, 권미선

*본 논문은 가톨릭중앙의료원 학술연구조성비로 이루어졌다.

환자는 28세의 출산력 2-0-0-2의 여자로서 수개월 전부터 기능성 자궁출혈과 지속적인 피로감을 주소로 내원하였다. 개인 의원과 본원 산부인과에서 시행한 소파술 후에도 월경기에 출혈양은 양적으로 더 증가되고 그 기간도 지연 되었으며 월경기외의 간헐적인 출혈도 빈번해졌다. 소파술 후 자궁내막 소견은 국소적으로 틸락막 변화를 보이는 분비기 상태로 아리아스-스텔라 반응은 관찰되지 않았다. 과거력 및 가족력에 특이할 만한 사항은 없었다. 이학적 검사에서 전신 상태는 허약감을 보였고 내원 당시 혈색소 9.0 g/dl, 헤마토크리트 27%로 중등도의 빈혈을 보인 외에는 검사 소견은 정상이었다. 초음파검사상 장경 2.5 cm의 경계가 명확하지 않은 저반향의(hypoechoic) 종괴가 자궁 기저부 후벽에서 관찰되어 (Fig. 1) 감별 진단으로 임신성 영양모세포성 종양, 동정맥기형, 임신, 다른 자궁 종양들을 감별 진단으로 생각하였다. 혈청 β -HCG치를 세 번에 걸쳐 측정하였으나 모두 정상 범위여서 임신성 영양모세포성 종양이나 임신의 가능성을 배제하였다. 자궁 종괴 진단하에 자궁적출술을 받았다. 적출된 자궁은 $8.0 \times 7.0 \times 4.0$ cm이었고 무게는 110.0 g이었으며 장막 표면은 매끈하고 이상 소견은 없었다. 자궁의 정중 및 연속 절개면에서 기저부 후벽에 장경 2.8 cm의 경계가 뚜렷하지 않은 혈관들의 집괴가 관찰되었는데(Fig. 2), 자궁내막하 근층의 표층부부터 심부쪽으로 전층의 3/4 정도를 침범하였다. 혈관은 허탈(collapse)을 보이거나 또는 확장되어 혈괴로 차 있었다. 자궁경관은 개방되어 있었고 자궁내막의 내강은 중등도로 확장되어 국소적으로 혈괴로 괴복되어 있었다. 내막은 적색을 띠었고 두께는 장경 0.2 cm이었다. 현미경 소견상 종괴는 매우 많은, 불규칙한 문합성의 큰 혈관들의 집괴로 구성되었으며(Fig. 3), 내막 및 중막의 비후 정도는 다양하여 그 벽이 비후되거나 또는 얇은 혈관들이 혼재되어 있었다. 병소를 구성하는 혈관 내강의 직경은 1 mm 이하도 흔했으나 큰 혈관은 3 mm 정도였고, 모세혈관이나 소혈관의 증식은 관찰되지 않았다. 다수의 혈관은 내강이 국소적으로 확장되어 있었다. 일부 혈관을 제외한 대다수의 혈관은 동맥과 정맥의 구분이 매우 어려웠다. 혈관에 따라 Verhoeff-van Gieson 염색상 동맥은 내측 및 외측 탄력섬유 한계막이 잘 관찰되었지만, 대개의 경우 뚜렷한 한계막이 없이 섬세한 탄력섬유가 혈관벽 전층에 흘어져 있거나, 또는 굵은 탄력섬유가 불규칙하고 커다란 응괴를 형성하는 경우도 드물지 않았다. 혈관들 사이의 지지 기질은 주로 교원섬유로 구성되었고, 기질에는 염증이나 출혈

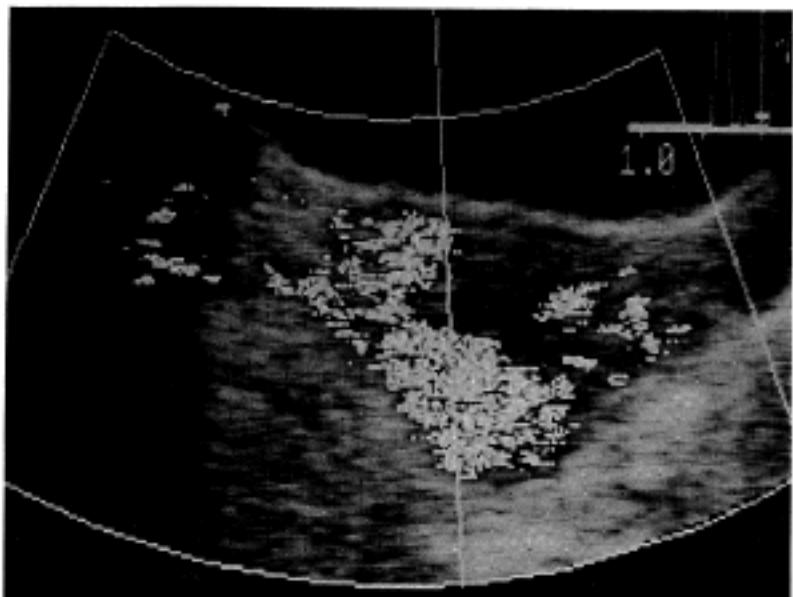


Fig. 1. Sonograph of the pelvis shows 2.5 cm sized slightly hypoechoic ill defined round lesion in the posterior wall of the uterine fundus.

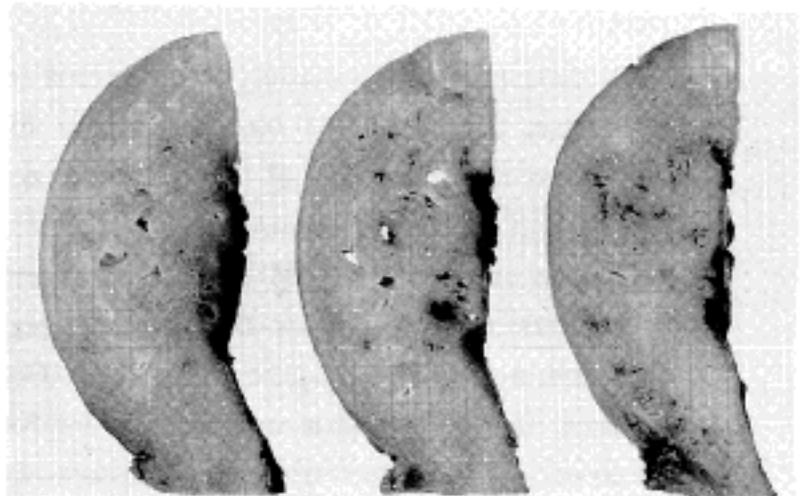


Fig. 2. An arteriovenous malformation mainly involves the posterior wall of the uterine fundus and consists of large irregular blood vessels.

소견이 관찰되지 않았다. 자궁내막은 증식성기로 자궁내막내에서는 비정상 혈관들이 관찰되지 않았지만 자궁내막과 근층의 경계부에서 0.1 cm 정도 떨어져서 비정상 혈관들이 관찰되었다.

자궁의 동정맥기형은 동맥, 정맥 및 모세혈관이 혼재되어 증식하는 일종의 혈관 누공으로 주로 자궁의 근층에서 발생하지만, 때때로 자궁내막, 자궁경관, 난소와 같은 부속기의 병소도 동반할 수 있다⁵. 이는 자궁의 동정맥기형은 23 내지 61세의 연령층에서 호발한다³. 주요 임상 소견은 기능성 자궁출혈인



Fig. 3. The arteriovenous malformation shows irregular, anastomosing large vessels with luminal occlusion on the right.

데 소파술을 시행하면 치료 효과가 없고 오히려 출혈을 악화시킨다고 알려져 있다^{1~4}. 따라서 불응성 자궁출혈이 있으면 자궁내 동정맥기형의 가능성을 생각해야 되며 소파술이나 분만시에 잠재적 위험성이 있다는 점도 유의해야 한다¹. 본 예에서도 개인 의원과 본원 산부인과에 내원하여 각각 시행한 소파술 후에 자궁출혈의 빈도와 출혈양이 증가하였다. 그러나 자궁내막에 미란이 없고 병소가 근층에 국한된 경우에는 소량의 출혈만을 보인다고 한다. El-Torky 등⁴에 의하면 자궁체부 및 경부에서 발생한 동정맥기형에서 통상적인 질검사, 즉 질천장(formix vaginae)의 촉진과 진동을 통하여 진단할 수 있다고 하였지만, 대다수의 예에서는 임상적인 이학적 검사로 진단이 가능하지 않다. 그러나 골반혈관조영술이나 초음파검사를 이용하면 진단이 보다 수월해진다고 한다^{1,3,5,6}. 본 예에서도 초음파검사를 이용하여 임상적으로 동정맥기형을 감별진단에 포함시킬 수 있었다. 육안 소견상 병소는 비교적 경계가 분명해 보이지만 미만성으로 침범하여 불명확한 경계를 보일 수도 있다. 본 예에서는 자궁기저부 후벽에서 경계가 불명확한 장경 2.8 cm의 종괴로 발생하였다. 본 예에서는 자궁내막이나 경부에서는 병소가 없었고 내막 직하 표층부 근층부터 심부쪽으로 전층의 3/4 정도를 침범하였다. 조직학적으로 동정맥기형을 이루는 혈관들은 혈관 내막 및 중막의 비후가 다양하여 벽이 비후되거나 또는 얇은 혈관들이 다양한

비율로 혼재되어 증식하였다. 통상적인 H-E 염색에서 혈관벽의 비후를 보이는 혈관들은 동맥과 정맥간의 구분이 어렵다고 하는데 그 원인은 높은 동맥혈압이 직접적으로 정맥에 영향을 미치면서 정맥내막이 심하게 비후되어 형태학적으로 동맥과 유사하게 변하기 때문이다¹. 탄력섬유에 대한 염색을 시행하면 소수의 큰 혈관에서 동맥은 내측 및 외측 한계막이, 정맥은 한 개의 한계막이 각각 잘 관찰된다고 한다⁴. 본 예에서도 일부 소수의 혈관에서만 동정맥 구분이 가능하였다. 감별 진단에서 혈관종은 자궁의 동정맥기형과 달리, 종양을 이루는 혈관들의 크기와 형태가 균일하며, 종양이 국소적이고 경계가 비교적 분명하며, 골반 혈관들의 확장이 뚜렷하지 않다⁵. 때때로 맥관성 자궁 근종과 감별해야하는데 이 경우는 혈관의 크기가 동정맥기형처럼 크지 않고 주로 모세혈관들이 증식하여 감별할 수 있다². 자궁의 동정맥기형은 선천성 또는 후천성으로 발생할 수 있는데 후자의 경우는 인공유산이나 제왕절개술과 같은 산과적 수술후에 혈관간의 누공이 이차적으로 형성되어 발생하며 또 자궁경관 및 내막의 암종, 영양모세포성 종양에서도 다발성 문합(shunt)이 발생할 수 있다고 한다⁵. 본 환자는 두 번의 출산력이 있었지만 모두 순산하였고, 인공유산이나 골반 수술 및 외상의 과거력도 없었으며 수술시에 동정맥기형을 유발할 만한 뚜렷한 선행원인이 없었기에 선천성 질환으로 생각된다. 자궁출혈을 억제하기 위하여 다수의

예에서는 통상적으로 본 예처럼 자궁적출술을 시행하여 왔다³. 골반의 혈관을 결찰하고 병소만을 절제하는 방법이 있으나 대부분의 경우 특히, 자궁의 병소가 있는 경우에는 재발하기 때문에 좋은 방법이 아니라고 생각한다⁵. 소수의 예에서 동맥내 색전화를 통하여 효율적으로 치료했다는 보고도 있다^{3,5,7}.

참 고 문 헌

1. Fleming H, Ostor AG, Pickel H, Fortune DW. Arteriovenous malformations of the uterus. *Obstet Gynecol* 1989; 73: 209-13.
2. Kim I, Ha SY, Yoon SA, Lee KW. Arteriovenous malformation of the uterus. *J Korean Med Science* 1991; 6: 187-90.
3. Kurman RJ. Blaustein's pathology of the female genital tract. 4th. ed. New York: Springer-Verlag, 1994: 400-1.
4. El-Torky M, Giltman L, Maijub A. Uterine arteriovenous fistula. *J Reprod Med* 1986; 31: 283-6.
5. Poppe W, Van Assche FA, Wilms G, Favril A, Baert A. Pregnancy after transcatheter embolization of a uterine arteriovenous malformation. *Am J Obstet Gynecol* 1987; 156: 1179-80.
6. Diwan RV, Brennan JN, Selim MA, et al. Sonographic diagnosis of arteriovenous malformation of the uterus and pelvis. *J Clin Ultrasound* 1983; 11: 295-8.
7. Wilms GE, Favril A, Baert AI, Poppe W, Van Assche FA. Transcatheter embolization of uterine arteriovenous malformations. *Cardiovasc Intervent Radio* 1986; 9: 61-4.