

난관의 완전 포상기태에서 발생한 폐의 전이형 임신성 영양모 세포증

경희분당차병원 해부병리과, 삼성의료원 진단병리과* 및 차병원 산부인과**

안 희 정 · 김 규 래* · 정 창 조**

"Metastatic Gestational Trophoblastic Disease in the Lung Occuring with Hydatidiform-mole in Tubal Pregnancy"

- A case report -

Hee Jeong Ahn, M.D., Kyu Rae Kim, M.D.,* and Chang Jo Chung, M.D.**

Department of Pathology, Kyung Hee Pundang CHA General Hospital,
Department of Diagnostic Pathology, Samsung Seoul Hospital* and
Department of Obstetrics and Gynecology, CHA Hospital**

Gestational trophoblastic disease associated with the tubal pregnancy is uncommon, and the incidence has been described as 1/5000 tubal pregnancy. We have experienced a case of metastatic gestational trophoblastic disease(GTD) in the lung occuring with complete hydatidiform mole arising in tubal pregnancy. The patient was a 39-year-old, G4P2A2L2 woman with amenorrhea for 5 weeks. Ectopic pregnancy in the right fallopian tube was suspected on transvaginal ultrasonogram. A right adnexectomy was performed. The fallopian tube was markedly dilated and ruptured. The right ovary and a round hematoma had adhered to the external surface of the fallopian tube. On gross examination, no molar tissue was identified. On microscopic examination, the lumen of the dilated fallopian tube was filled with blood clots admixed with several chorionic villi showing hydropic swelling and marked proliferation of atypical trophoblasts. Proliferating syncytio-and cytotrophoblasts invaded the wall of the blood vessels of the fallopian tube and sheets of trophoblasts and some villi were identified in the lumen of blood vessels. Multiple pulmonary nodules thought to be metastatic nodules were identified in the chest X-ray and serum β -HCG had increased 2 weeks later. This case indicates that a careful pathological examination in the ectopic pregnancy is mandatory, because tubal GTD is not clinically distinguishable from ordinary tubal pregnancy. (**Korean J Pathol 1996; 30: 851 ~ 853**)

Key Words: metastatic GTD, complete H-Mole, tubal pregnancy

자궁외 임신은 전체임신의 약 1~2%를 차지하고 포상기태는 전체임신의 약 0.8%로 그리 적지 않으나 자궁외 임신에 동반된 포상기태는 전체 자궁외 임신의 1/5000 정도로 드물게 보고되어 있다. 저자는 자궁외 임신 의심하에 적출된 난관에서 고도의 영양모 세포의 증식을 보이는 포상 기태가 폐에 전이형 임신성 영양모 세포증(Gestational trophoblastic disease; GTD)으로 발전된 매우 드문예를 경험하여 보고하는 바이다.

증례: 환자는 G4P2A2L2의 39세 여자로서 5주간의 무월경을 주소로 내원 하였다. 경질 초음파(transvaginal ultrasonography) 상에서 우측 난관의 자궁외 임신이 의심되어(Fig. 1), 우측 자궁 부속기 절제술을 시행받았다. 육안소견상 우측난소는 우측 난관과 3×2 cm 크기의 혈종이 유착 되어있었다. 우측 난관은 길이가 6 cm이고 최대직경이 3 cm였으며 내강은 혈종으로 가득 채워져 있었고 육안적인 수포성 변화는 뚜렷이 관찰되지 않았다. 조직학적 소견상 난관의 내강은 다양한 크기의 수포성 변화를 보이는 용모가 혈종내에 산재되어 있었고 태아 조직이나 양막 구조는 관찰되지 않았으며 고도의 영양모 세포의 증식이 용모주변으로 환상 배열을 하거나 결절을 형성하고 있었다(Fig. 2). 증식된 영양모 세포들은 이형증을 보였으며(Fig. 3) 혈관 벽을 침윤하여 혈관 내에서는 용모와 함께 다수의 영양모 세포의 군집들이 관찰되었다(Fig. 2). 환자는 수술 2주후에도 계속 오심, 구토의 증상을 보였으며 혈청 β-HCG가 81,000 mIU/ml 로 증가되어 있었다. 흉부 X-선

사진과 전산화 단층 촬영에서 다발성 폐전이 소견을 보였으며 골반 자기공명 영상에서 우측 자궁 부속기 위치에 2.5 cm 크기의 경계가 분명한 종괴가 관찰되었다. 환자는 전이형 GTD로 진단받고 10 차례의 항암제 치료(EMA; Etoposide/Methotrexate/Actinomycin)를 받은 후 혈청 β-HCG는 정상 범위로 감소하였고, 폐 결절들도 그 수와 크기가 매우 감소된 상태이다.

고찰: 자궁외 임신과 동반된 GTD는 매우 희귀하다. 일반적으로 용모막 암종은 5333건의 난관임신 중 1건의 비율로¹ 보고되어 있으며, 난관 임신에 동



Fig. 2. The lumen of the fallopian tube is filled with blood clot and hydropic villi surrounded by marked trophoblastic proliferation. The lumen of blood vessel in the tubal wall (arrow) shows a chorionic villus with cluters of trophoblasts. (H&E, ×20)



Fig. 1. The transvaginal ultrasonogram demonstrates a 6cm-sized, ill-defined, mixed echogenic mass with fluid collection in the right adnexa.

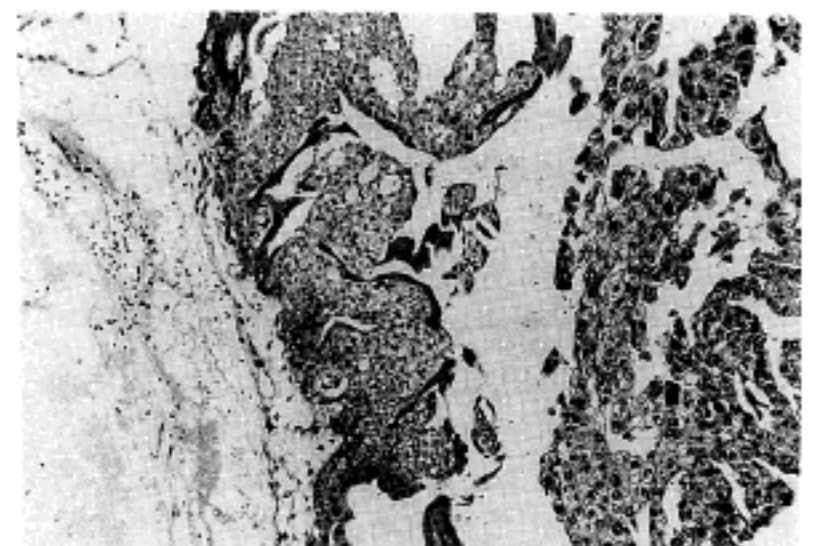


Fig. 3. The cytological atypism and frequent mitoses are found in proliferating syncytio- and cytotrophoblasts. (H&E, ×100)

반된 포상기태는 세계 문헌에 1995년까지 약 50건이 보고되어 있다^{2,3}. Muto 등⁴은 1965년부터 1990년 사이 New England Trophoblastic Disease Center 에서 치료를 받았던 2100명의 임신성 영양모 세포증 환자 중 난관에 발생한 환자는 0.8%(16명) 이었고 이들의 임상적인 소견은 일반적인 난관 임신과 구별이 되지 않았다고 보고 하였다. 이들중 완전 포상기태는 5명(31%), 부분기태 5명(31%), 암종은 6명(38%) 이었다. 평균연령은 29세 였으며 치료전 β -HCG 치는 평균 3754 mIU/ml 였다. 그중 1예(20%)에서 수술 1달후 폐전이를 보였으며 4차례의 화학요법(actinomycin D) 치료후 완전관해(complete remission) 되어 난관의 포상기태는 자궁내에서 발생하는 경우(약 30%) 보다 전이성 또는 지속성 GTD 로 발견되는 확률이 낮다고 보고하였다. 일반적으로 지속성 또는 전이성 GTD의 가장 흔한 형태는 침윤성 기태이고 음모막 암종보다 6-10배 호발하는 것으로 알려져 있다⁵.

또한 난관의 GTD는 혈청 β -HCG가 낮고 그밖의 임상소견도 일반적인 자궁외 임신의 소견을 보이기 때문에 수술전 임상진단이 매우 어렵지만^{4,5} 최근에는 경질 color-flow doppler 방법으로 그 진단율을 높일 수 있다.

난관에 발생한 포상기태의 조직학적 진단은 일반적인 자궁내 포상기태의 진단기준과 동일하다^{6,7}. 본 예에서도 수술전 임상적으로 난관 포상기태의 진단을 하지 못하였고 육안 소견에서도 난관내강 전체가 혈종으로 가득 차 포상 변화를 관찰하지 못하였으나 조직학적으로 음모의 뚜렷한 수포성 변화, 영양모 세포의 고도의 과증식과 함께 다수의 혈관 침윤 양상을 보여 완전 포상기태로 진단하였으며 2주 후 폐에서 전이형 GTD가 발견되었다.

그러나 일반적인 자궁외 임신에서 음모의 수포성 변화(hydropic degeneration)가 자주 나타나며, 임신

초기의 음모에서는 정상적으로도 왕성한 영양모 세포의 증식을 보이기 때문에 포상기태와의 감별이 어려운 경우도 있다. 또한 최근 자궁외 임신의 빈도가 증가하는 추세이므로 난관의 포상기태도 그 절대 숫자가 증가하리라고 예상된다. 그러므로 일상적인 난관 임신의 진단시에도 GTD의 가능성을 염두에 두고 보다 주의깊은 조직학적 관찰이 필요하리라고 생각된다.

참 고 문 헌

1. Hertig AT, Mansell H. Tumors of the female sex organs: I. Hydatidiform mole and choriocarcinoma. In Atlas of tumor pathology. Section IX, fascicle 33. Washington, DC: Armed Forces Institute of Pathology, 1956: 1-30.
2. Chua RN. Fallopian hydatidiform mole: A case report. Ind Med 1988; 10: 26-8.
3. Smith R. Tubal hydatidiform mole. Ill Med J 1980; 158: 173-6.
4. Muto MG, Lage JM, Berkowitz RS, Goldstein DP, Bernstein MR. Gestational trophoblastic disease of the fallopian tube. J Rep Med 1991; 36: 57-60.
5. Asseryanis E, Schurz B, Eppel W, Wenzl R, Vavra N, Husslein P. Detection of an atypical invasive mole in an ectopic pregnancy by transvaginal color-flow doppler [letter]. Am J Obstet Gynecol 1993; 169: 1656.
6. Szulman AE, Surti U. The syndromes of hydatidiform moles: I. Cytogenetics and morphologic correlations. Am J Obstet Gynecol 1978; 131: 665-71.
7. Szulman AE, Surti U. The syndromes of hydatidiform mole: II. Morphologic evolution of the complete and partial mole. Am J Obstet Gynecol 1978; 132: 20-7.
8. Kurman RJ. Blaustein's Pathology of the female genital tract. 4th.ed. New York: Springer-Verlag, 1994: 1055-67.