

두 공존태아와 동반된 완전포상기태 1예

연세대학교 의과대학 산부인과학교실¹, 한라병원 산부인과², 한라병원 병리과³
박현종¹ · 이문휘² · 문영진² · 임기은² · 하창원³ · 권자영¹ · 박용원¹

A Case of the Complete Hydatidiform Mole with Two Coexisting Fetuses

Hyun Jong Park, M.D.¹, Mun Hwi Lee, M.D.², Young Jin Moon, M.D.², Ki Eun Lim, M.D.²
Chang Won Ha, M.D.³, Ja-Young Kwon, M.D.¹ and Yong-Won Park, M.D.¹

¹Department of Obstetrics and Gynecology, College of Medicine, Yonsei University, Seoul, Korea.
²Department of Obstetrics and Gynecology, ³Department of Pathology, Halla General Hospital, Jeju, Korea

Hydatidiform mole with a coexisting fetus is rare, but this condition has recently shown an increased incidence because of assisted reproduction technology. In most of the reported cases, termination at diagnosis was preferred due to poor fetal survival and maternal risk factors such as vaginal bleeding, preeclampsia, hyperthyroidism, potential of malignant change. However, considering the value of pregnancy by assisted reproduction technology, whether to continue or to terminate this condition is a dilemma. Based on currently available information, it seems that it is reasonable to allow the pregnancy to continue in the absence of maternal complications. We report on a case of the complete hydatidiform mole with two coexisting fetuses with a brief reviews of the literature.

Key Words : Complete hydatidiform mole, Coexisting fetus, Twin pregnancy, IVF-ET

포상기태는 비정상적으로 발달된 융모막 융모(Chorionic villi)를 가진 태반으로서, 세포유전학 및 병리소견에 따라 완전포상기태와 부분포상기태로 나눌 수 있다.¹ 일반적으로 완전포상기태에서 지속성 융모성 종양이 발생할 확률은 약 20%로 보고되고 있으며, 부분포상기태에서는 5%로 보고되고 있다.² 포상기태와 생존태아가 동반되는 경우는 극히 드물며, 그 빈도는 모든 임신의 0.005%에서 0.01% 정도로 보고되고 있다.³ 이런 경우, 대부분 초기임신에서 진단이 내려지며, 중증전자간증, 갑상선기능항진증, 심한 임신오조, 질출혈 등의 위험으로 임신을 지속하기 어려우므로 보통 임신중절이 선호된다.^{4, 5}

최근 사회적으로 임신과 출산이 감소하면서 가임여성 이 고령화되는 양상과 더불어 보조생식술 또한 증가하는 추세로 이에 따른 다태임신의 발생 또한 빈발하고 있다.⁶ 따라서, 보조생식술 시행 후 포상기태를 동반한 다태임신의 발생 또한 계속 이어질 것으로 사료되나, 현재 처치에 관한 적절한 기준이 확립되어 있지 않은 상태이다.

저자들은 체외수정술 시행 후, 완전포상기태와 동반된 두 생존태아를 성공적으로 분만한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 강○숙, 27세

주 소 : 질출혈

산과력 : G2 P0 L0 D0 A1로 계류유산의 경험이 1회 있었다.

월경력 : 초경은 14세에 있었고, 월경주기는 28일 주

접수 : 2009년 9월 3일, 수정 : 2009년 10월 14일
승인 : 2009년 10월 28일
주관책임자 : 이문휘, 690-766 제주 특별자치도 제주시 연동 1963-2 한라병원 산부인과
전화 : 064)740-5000 · 전송 : 064)743-3110
E-mail : roselmh@hanmail.net

기로 규칙적이었고, 지속기간은 5일이었으며, 양은 중등도였으나, 월경장애가 있었다.

가족력 : 특이소견 없었다.

과거력 : 2000년도에 불임 및 생리통으로 복강경 수술을 시행받았고, 당시 자궁내막증으로 진단받고 Zoladex 6회 피하주사로 치료받았다.

현병력 : 2001년 9월경 불임증으로 외부병원에서 체외수정시술을 시행 받아 4개의 배아이식 후, 사태임신(quadruplet) 확인되었고 이중 자연유산과 선택적 감축술을 통해 쌍태임신으로 지속적인 외부병원 진찰을 받던 중, 계속되는 질출혈을 주소로 임신 15+3주에 본원으로 전원되었다. 외부병원에서 시행한 산전 검사상 특이소견은 없었다.

입원 당시 이학적 검사 소견 : 내원 당시, 전신 상태는 양호하였고, 혈압은 120/70 mmHg, 맥박 88회/분, 호흡 20회/분, 체온은 36.5°C, 소량의 질출혈이 관찰되었으며, 자궁경부는 개대되지 않았고, 양막파수의 소견은 없었으며, 자궁수축의 소견도 관찰되지 않았다.

입원 당시 검사소견 : 내원 당시 일반혈액검사상 혈색소 9.0 g/dL, 적혈구 용적 27.9%, 백혈구 6,000/mm³, 혈소판 214,000/mm³이었고, 요검사, 혈중 전해질검사

및 일반화학검사, 혈액응고검사, 심전도 검사는 정상이었다. 입원 당일 시행한 용모성 성선자극호르몬 수치는 387,000 mIU/mL 였으며, 갑상선 기능검사는 정상이었으며, 흉부 X-선 검사상 정상소견이었다.

산과초음파 검사상 자궁기저부 및 하부에 혼합 반향성의 종괴(mixed echogenic lesion) 소견이 관찰되었고, 혈중으로 추정되었으며, 양 태아는 초음파상 16+0주, 16+3주로 측정되었고, 양 태아 기형의 소견은 관찰되지 않았다.

입원 후 경과 및 처치 : 최초 입원 후 절대안정을 취하고, 경과관찰 하였다. 입원 3일째 지속적인 질출혈과 더불어 규칙적인 자궁수축이 관찰되어 수액요법과 자궁수축억제제로 조절하였다. 임신 16+2주에 실시한 Triple marker test의 결과는 정상 소견을 보였다. 이후 계속되는 질출혈로 인한 빈혈이 발생하여 수혈로써 조절하였고, 감염의 증거는 관찰되지 않았다. 경과관찰 중이던 임신 20+3주에 포상기태가 동반된 쌍태아 임신을 의심하였고(Fig. 1, 2), 용모성 성선자극호르몬 수치는 256,000 mIU/mL로 입원 당시 검사 시 보다 감소된 양상을 보였으며, 흉부 X-선 검사상 정상소견이었다. 이에 산모와 보호자에게 현임신의 유지가 쉽지 않고, 악성으로의 전이

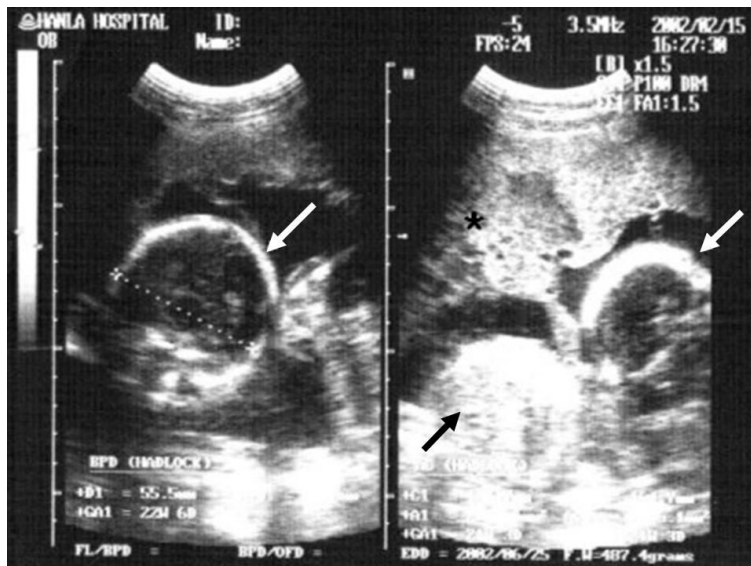


Fig. 1. At 22 gestational weeks, transabdominal ultrasonogram of the twin pregnancy with hydatidiform mole. The sonogram shows (1) heads of the first and second fetuses (white arrows), (2) the body of the second fetus (black arrow), and (3) the hydatidiform molar mass (asterix).



Fig. 2. Transabdominal ultrasonogram of the hydatidiform mole at 19 gestational weeks.

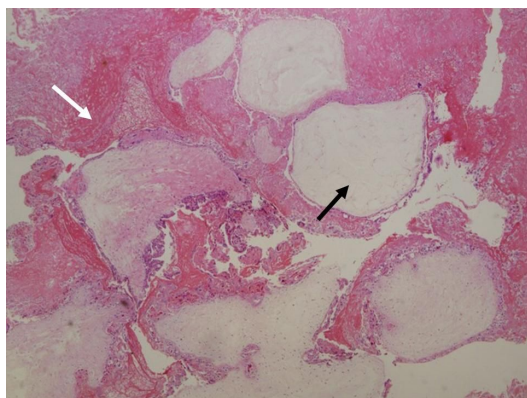


Fig. 3. A complete hydatidiform mole. The villus is swollen with fluid and partly covered by proliferating trophoblasts. Pathology shows trophoblastic proliferation (white arrow) and big cysterns in hydropic villus (black arrow) (H&E stain, x40).

가능성 및 여러 합병증의 가능성을 설명한 후, 임신유지 여부를 선택하게 한 결과 계속 임신을 유지하기로 하였다. 이후 질출혈은 소량씩 계속되었으나, 많은 양은 아니었으며, 자궁수축도 자궁수축억제제에 반응을 잘 하였다.

임신 23+0주에 측정된 융모성 성선자극호르몬 수치는 239,000 mIU/mL로 감소되는 양상을 보였고, 임신 25+5주에 태아에 대한 정밀초음파를 시행하였고, 특별한 기형이 관찰되지 않았고, 포상기태 크기도 증가하지 않았다. 임신 27+1주에 갑자기 산모체온이 38.1°C까지 상승하면서 백혈구 수치 29,500/mm³으로 증가하였고, 자궁수축이 억제되지 않아, 자궁경부의 변화까지 오게 되어, 융모양막염 의심하에 분만하기로 결정하였으며,

Dexamethasone 5 mg 1회 근육주사로 주입한 후, 질식 분만을 시행하여, 임신 27+2주에 남아 980 g (Apgar score 1분 1점, 5분 3점, 10분 6점)과 여아 890 g (Apgar score 1분 1점, 5분 3점, 10분 4점)을 각각 분만하였다. 분만 후 포도송이 모양의 포상기태조직과 잔존태반을 제거하여 조직검사를 시행하였고, 혈액응고물질이 자궁내 남아있어, 흡입소파수술을 시행 후 잔존조직의 완전제거를 시도하였다.

분만 후 경과 : 분만 후 2주후 측정된 융모성 성선자극호르몬 수치는 152 mIU/mL로 현저히 감소되었고, 흉부 X선 사진상 특이소견 없었다. 매주 추적한 결과 융모성 성선자극호르몬 수치는 지속적인 감소를 보이다가 분만 6주 후, 3.3 mIU/mL로 정상화되었고, 분만 16주 후에는 0.1 mIU/mL로 측정된 후, 주기적인 추적검사에서 상승소견 보이지 않았다. 한편 두 태아 중 남아는 분만 후 신생아집중치료실에서 12일간 인공호흡기 치료 시행 받았고, 생후 50일째에 미숙아 망막증 치료위해 외부병원으로 전원 되었고 전원당시 몸무게 1,500 g이었다. 여아는 분만 후 신생아집중치료실에서 15일간 인공호흡기 치료 시행 받았고, 생후 43일째에 역시 미숙아 망막증 치료 위해 외부병원으로 전원 되었고 전원당시 몸무게는 1,090 g이었다. 두 태아는 현재 생존이 확인된 상태로 특별한 합병증 없이 모두 건강한 상태이다.

병리소견 : 태반은 육안적으로 이양막과 이융모막으로 구성되어 있었다. 포상기태조직은 괴사된 태반조직기반 내에 현저한 영양막세포 과증식과 융모의 현저한 수중성 변성 및 부종을 동반하여, 완전포상기태 소견에 해당하였다(Fig. 3).

고 찰

포상기태가 생존태아와 공존하는 경우는 매우 드물지만, 임신 지속 시, 심각한 질출혈, 중증전자간증, 갑상선 기능항진증 등의 위험성이 증대되고, 포상기태조직의 악성화 및 전이 가능성 때문에 과거에는 진단이 확실하다면 임신중결이 권유되어졌다.^{4,5} 보조생식술 시행 후, 정상태아와 동반된 포상기태의 빈도는 포상기태의 일반적인 발생빈도와 비슷할 것으로 보이며, 최근 보조생식술

시행의 증가로 다태임신의 발생 역시 증가하고 있으므로, 포상기태과 정상임신이 공존하는 다태임신의 발생 또한 계속 늘어날 것으로 사료된다. 이런 경우, 임신유지의 고위험성으로 인해 보통 임신종결이 권유되지만, 보조생식술을 시행하는 불임여성에 있어선 임신의 의미가 각별하다는 특수성을 고려할 때, 이런 경우 태아생존가능시기까지의 임신지속여부를 결정하는 것은 매우 어려운 일이다. 최근에는 임신유지가 합리적이라는 주장이 많이 제기되고 있다.

Vejerslev는 완전포상기태와 생존태아가 공존하였던 113예를 분석한 결과, 임신 28주 이전에 분만할 경우에는 생존태아는 없었지만, 임신 28주 이후까지 임신을 유지한 경우, 69.2%의 태아가 생존하였고, 따라서, 임신 28주를 넘어서면 태아의 생존가능성이 높아지므로 임신유지의 의의가 있다고 보고하였다.⁷

Steller 등은 생존태아와 공존한 완전포상기태임신 8예에 대한 보고에서 지속성 융모성 종양으로 발전할 가능성이 55%로 매우 높다고 하였으나,⁵ Bristow 등은 생존태아와 완전포상기태가 공존하는 26예들을 제시하면서 그중 7예들만 생존태아를 보고하였고 생존가능하지 않았던 군에서 지속성 융모성 종양이 발생할 확률을 68.4%, 생존태아군에서 지속성 융모성 종양이 발생할 확률을 28.6%로 보고하면서 생존태아군에서의 증식 영양막세포들은 덜 공격적이며, 자연적으로 퇴행하는 성향이 있음을 제시하였다 따라서, 태아생존률과 직결되는 임신주수의 연장은 지속성 융모성 종양의 발생률과는 무관하다고 보고하였다.³

Kauffman 등은 폐로 전이된 완전포상기태와 동반된 생존태아에 28주까지 기대요법으로 관리하여, 건강한 태아를 제왕절개분만 후, 단일항암화학요법을 사용하여 6개월 후, 완전관해된 1예를 보고하였다.⁹

Sebire 등은 완전포상기태와 생존태아가 공존한 77예를 분석하였고, 임신을 지속한 53예 중 20예(37.7%)에서 평균 35주의 제태연령을 갖는 성공적인 임신을 보고하였고, 전체 14주 이전에 종결된 임신군과 14주 이상 유지한 임신군과의 침윤암 및 악성화 가능성에 대한 비교연구에서 14주 이상 유지하더라도 악성화나 침윤암으로의 진행위험도가 14주 이전 임신종결군에 비해 증가하지 않음을 보고하였다.¹⁰

이상의 보고들을 종합할 때, 초음파 검사 및 태아의 염색체 검사들(융모막생검술, 양수천자)을 통해 정상태아임이 확인되고, 모체 합병증이 없는 이상 태아발달을 위해 기대요법을 사용하는 것은 정당화될 수 있다고 판단된다.

임신예후에 대한 예측인자로서, Vejerslev는 임신 2삼분기 초기부터 융모성 성선자극호르몬수치가 감소되는 경향이 있다고 보고하였는데, 이는 한정된 자궁내 공간으로 인해 포상기태의 변성이 일어나는 것으로 보여지며, 융모성 성선자극호르몬의 추적검사를 통해 지속적인 감소추세라면 생존태아를 분만할 수 있을 가능성이 높음을 예측할 수 있다고 하였다.⁷ 하지만, 융모성 성선자극호르몬 수치가 10만 이상이라면 불량한 임신예후를 나타내며, 높은 호르몬 수치는 임신종결의 적응증이 될 수 있다고도 하였다.⁷

Kashimura 등은 포상기태와 생존태아가 동반된 10례에서 세포유전학적 검사를 통한 분석에서 이형접합자 형태의 포상기태에서 동형접합자 형태의 포상기태보다 지속성 융모성 종양의 발생빈도가 더 높았다고 보고함으로써 세포유전학적 검사가 임신예후 예측에 유용한 지표가 될 수 있음을 제시하였다.¹¹ 본 증례의 경우, 세포유전학적 검사는 2002년 당시 실시하지 않았다.

임신을 중단해야할 적응증으로 Bristow 등은 전자간증의 악화, 기대요법으로 치유불가능한 질출혈, 심한 임신오조, 갑상선기능항진증, 영양막세포의 색전 및 전이소견을 들었고,⁸ 특히 Marcorelles 등은 전자간증은 불량한 결과를 암시하므로, 임신종결의 절대적 적응증임을 강조하였고, 악성화 및 전이를 체크하기 위해 흉부 X-ray, 복부초음파, 융모성 성선자극호르몬수치 추적 혹은 전산화 단층촬영을 반복할 필요성이 있다고 하였다.¹²

전반적인 임신예후의 측면에서 볼 때, Vaisbuch 등은 기존의 대규모 임상연구들을 토대로 분석하여, 만약 임신유지의 결정에 있어서, 단지 25% 정도만 생존태아의 성공적 분만이 이루어질 수 있으며, 미숙아의 위험성을 경고해야 한다고 하였고, 지속성 혹은 전이성 융모성 종양의 위험성으로 인해 출산후 33% 정도는 항암치료를 받아야 함을 임신부에게 사전설명 해야함을 강조하였다.¹³

지금까지 국내에서 포상기태와 정상태아가 동반된 경우 중 임신을 지속하여 정상적인 태아를 분만할 경우는 2

예로 보고되었으나, 1예의 경우 분만 후 신생아 폐혈증으로 사망하였고, 1예에서만 현재 생존해 있다.^{14, 15}

본 증례의 경우, 체외수정시술 후 사태임신에서 선택적 감축술을 시행한 후 쌍태임신에서 완전포상기태 동반이 확인된 매우 드문 경우로, 산모는 임신을 지속시키기 원하였고 질식 분만을 시행하여 쌍태아 모두 현재 생존이 확인된 상태이다. 앞으로 포상기태와 공존하는 생존태아에 대한 적절한 임상적 지침을 마련하여 임신지속여부 결정에 대한 올바른 판단을 내릴 수 있기를 바라며 본 예를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) The Korean Society of Obstetrics and Gynecology. Gynecology. 4th ed. Seoul: Korea Medical Book Publishers, 2007.
- 2) Goldstein DP, Berkowitz RS. Current management of complete and partial molar pregnancies. J Reprod Med 1994;39:139-46.
- 3) McDonald TW, Ruffolo EH. Modern management of gestational trophoblastic disease. Obstet Gynecol Surv 1983;38:67-83
- 4) Jones WB, Lauersen NH. Hydatidiform mole with coexistent fetus. Am J Obstet Gynecol 1975;122:267-72.
- 5) Steller MA, Genest DR, Bernstein MR, Lage JM. Natural history of twin complete mole and coexisting fetus. Obstet Gynecol 1994;83:35-42.
- 6) The Korean Society of Obstetrics and Gynecology. Current status of assisted reproductive technology in Korea, 2005. Korean J Obstet Gynecol 2008;51:1421-47.
- 7) Vejerslev LO. Clinical management and diagnostic possibilities in hydatidiform mole with coexistent fetus. Obstet Gynecol Surv 1991;46:577-88.
- 8) Bristow RE, Shumway JB, Khouzami AN, Witter FR. Complete hydatidiform mole and surviving co-existent twin. Obstet Gynecol Surv 1996;51:705-9.
- 9) Kauffman DE, Sutkin G, Heine RP, Watt-Moore M, Price FV. Metastatic complete hydatidiform mole with a coexistent twin. J Repro Med 1999;44:131-4.
- 10) Sebire NJ, Fosskett M, Paradinas FJ, Fisher RA, Ros JF, Short D, et al. Outcome of twin pregnancies with complete hydatidiform mole and healthy co-twin. Lancet 2002;359:2165-6.
- 11) Kashimura Y, Tanaka M, Harada N, Shinmoto M, Morishita T, Morishita H, et al. Twin pregnancy consisting of 46, XY heterozygous complete mole coexisting with a live fetus. Placenta 2001;22:323-7.
- 12) Marcocelles P, Audrezet MP, Le Bris MJ, Laurent Y, Chabaud JJ, Ferec C, et al. Diagnosis and outcome of complete hydatidiform mole coexisting with a live twin fetus. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol 2005;118:21-7.
- 13) Vaisbuch E, Ben-Arie A, Dgani R, Perlman S, Sokolovsky N, Hagay Z. Twin pregnancy consisting of a complete hydatidiform mole and co-existent fetus: report of two cases and review of literature. Gynecol Oncol 2005;98:19-23.
- 14) Nah SS, Bae SN, Kim JS, Park CH, Lee HN, Namkoong SE. A case of complete hydatidiform mole with coexisting surviving fetus. Korean J Obstet Gynecol 2000;43:1469-72.
- 15) Park BJ, Lee K, Lee BS, Kim JH, Park JH. A case of complete hydatidiform mole with a surviving co-existent live fetus. Korean J Obstet Gynecol 2002;45:162-6.

= 국 문 초 록 =

정상임신과 포상기태가 동반된 임신은 그 빈도가 아주 드물지만, 보조생식술의 발달로 사례보고는 점점 늘어날 것으로 예상된다. 보통 질출혈, 전자간증, 갑상선기능항진증, 악성화의 위험성 때문에 조기임신 종결이 권유되어지나, 보조생식술을 이용하여 임신한 불임산모의 특수성을 고려할 때, 임신의 지속여부를 결정하는 것은 매우 어려운 일이다. 최근 임신유지를 하는 것이 합리적이라는 주장들이 제기되고 있다. 저자들은 체외수정시술 후 완전포상기태와 동반된 두 생존태아를 질식 분만하였던 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 완전포상기태, 공존태아, 쌍태임신, 체외수정