Tuberculosis and Respiratory Disease 결핵 및 호흡기질환, Vol. 44, No. 1, February, 1997

□ 증 례 □

월경성 객혈로 발현되고, 부분폐엽절제술로 치료된 폐실질의 자궁내막증식증 1예

아주대학교 의과대학 호흡기내과학교실, 흉부외과학교실* 진단방사선과학 교실**, 병리학 교실***.

이선민·정성철·김상돈·마경애·김영준·송영구
황성철·이이형·류한영*·이철주*·박경주**·김정선***·한명호

= Abstract =

Catamenial Hemoptysis Caused by the Endometriosis of the Lung Parenchyme, Treated with Bisegmental Wedge Resection

Sun Min Lee, M.D., Sung Chul Chung, M.D., Sang Don Kim, M.D.
Kyung Ai Ma, M.D., Young Joon Kim, M.D., Young Goo Song, M.D.
Sung Chul Hwang, M.D., Yi Hyung Lee, M.D., Han Young Ryu, M.D.*
Chul Joo Lee, M.D.*, Kyoung Joo Park, M.D., Jung Sun Kim, M.D.***, Myoung Ho Han, M.D.**

Department of Pulmonology and Critical care Medicine, Cardiovascular Surgery, Radiology** and Pathology***, Ajou University School of Medicine, Suwon, Korea*

Catamenial hemoptysis is a term used to describe recurrent hemoptysis occuring at the time of menstruation and is caused by the presence of thoracic endometriosis. The diagnosis is almost always established on the clinical grounds and by exclusion of other causes of recurrent hemoptysis. The pathogenesis of the thoracic endometriosis is not clear but several hypothesis have been proposed, such as retrograde flow of the endometrial tissue through the diaphragmatic defects, microembolization through pelvic veins and differenciation into endometrial tissues.

We report a case of a 35-year-old woman who presented with catamenial hemoptysis caused by the endometriosis of lung parenchyme. The lesion was localized to the right upper lobe posterior segment and right lower lobe superior segment by the computerized tomogram of the chest during the time of mensturation and treated effectively with bisegmental wedge resection.

Key words : Catamenial hemoptysis, Thoracic endometriosis, bisegmental wedge resection.

서 론

월경성 객혈은 생리와 동반되어 발생하는 객혈로서 생리기간이 끝나면 자연히 소실되는 매우 드문 질환으로, 이는 폐실질 내부 또는 기관지에 자궁내막증식증이 발생함으로써 나타나는 질환이다.

흉부 자궁내막증식증의 임상양상으로는 객혈, 기흉, 혈흉 또는 무증상의 소결절 등이 있을 수 있으며, 이 중 객혈이 차지하는 비율은 약 7% 정도이다[1].

월경성 객혈의 진단은 월경과 동반되어 발생하고 월경소실과 함께 호전되는 반복적인 객혈이 나타나는 특징적인 임상양상으로 진단하며 보조적인 수단으로 흉부 전산화단층촬영과 기관지내시경검사등이 이용된다.

저자들은 매월 월경시 발생한 객혈을 주소로 내원한 35세 여자 환자에서 월경 당시 시행한 흉부 전산화단층촬영으로 병소를 확인 한 후 부분폐엽절제술로 치유한 흉부 자궁내막증식증을 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 하 ○ 임 , 여자, 35세.

주 소 : 객혈

현병력 : 본 환자는 89년 11월에 첫 아이를 정상 질식분만하였고, 94년 8월 28일에 둘째아이를 정상 질식분만하였으며, 같은 해 9월 초에 자궁내 피임장치를 삽입하였다. 환자는 이 후 별 문제없이 지내던 중 95년 1월, 생리 시작 후 3일경에 호흡곤란, 기침 및 소량의 객혈이 있었으며, 그 후 2월, 3월, 4월의 생리 기간에 객혈이 있어 타병원 이비인후과에서 진료받았으나 이상소견을 발견하지 못하였다. 이 후 객혈 없이 지내던 중 95년 11월부터 다시 매월 생리기간에 객혈이 있어 96년 3월 본원에 내원하였다.

과거력 : 특이소견 없음.

산과력 : G_4 P_2 L_2 D_0 A_2

가족력 : 특이소견 없음.

이학적 소견 : 내원 당시 혈압은 140/90mmHg, 맥박수는 80회/분, 호흡수는 20회/분, 체온은 37℃ 이었다. 의식은 명료하였으며 두경부에서는 이상소견이 없었다. 심음은 정상이었으며 우측 중폐야에서 거친 호흡음이 청진되었으며 수포음은 들리지 않았다. 간 및 비장은 촉지되지 않았으며 골반내진검사상 이상소견은 없었다.

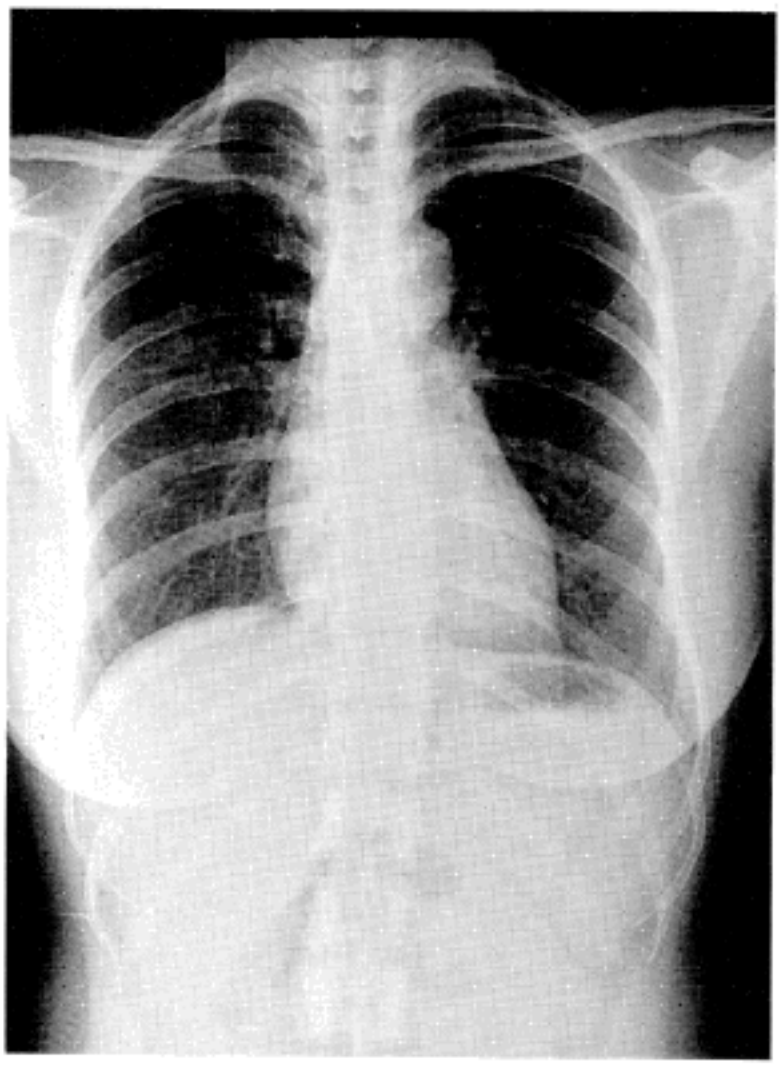

Fig. 1. The chest PA taken during the menstruation showed consolidation on right upper lobe.

검사 소견 : 내원 당시 시행한 말초혈액검사상 혈색소 11.8g/dl, 헤마토크릿 35.1%, 백혈구 7,900/mm^3, 혈소판 213,000/mm^3이었고, 혈액화학적검사, 소변검사, 대변검사 및 심전도검사의 특이소견은 없었다.

객담 결핵균 도말검사 및 세포진검사는 음성이었다.

내원 당시 시행한 단순 흉부촬영에서 우측 폐상엽에 폐포성 침윤소견이 관찰되었다. 동시에 시행한 흉부 전산화단층촬영에서 우상엽의 후분절과 우하엽의 상분절에 폐출혈이 의심되는 경화(consolidation)소견을 보였다.

기관지내시경검사에서는 우상엽의 후분절 기관지분지와 우하엽의 상분절 기관지분지에 혈흔이 관찰되었으며, 활동성 출혈은 없었다.

폐기능검사상 FEV_1 2.23L로 정상소견을 보였다.

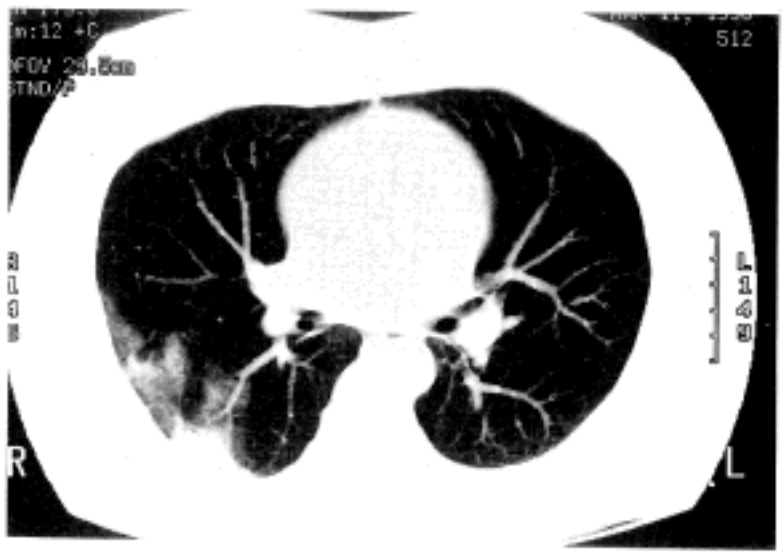

Fig. 2. The Computed tomogram of the chest taken during the menstruation identified pulmonary hemorrhage on posterior segment of right upper lobe and superior segment of right lower lobe.

치료 및 경과 : 내원 7일째 생리기간이 끝난 후 다시 시행한 고해상도 흉부 전산화단층촬영에서 예전의 검사와 비교하여 경화소견이 현저히 감소된것을 확인하였다. 병력 및 흉부 전산화단층촬영 결과로 폐실질내 자궁내막증식증의 진단하에 내원 9일째에 우상엽 후분절 및 우하엽 상분절의 부분폐엽절제를 시행하였다. 수술 시야에서 우상엽과 우하엽의 불완전 분리가 관찰되었으며 육안적으로는 병소의 확인은 어려웠다. 그 후 환자는 특별한 합병증 없이 수술후 11일째에 퇴원하였다. 이 후 환자는 월경기간 중에도 객혈의 증상 없이 지내고 있다.

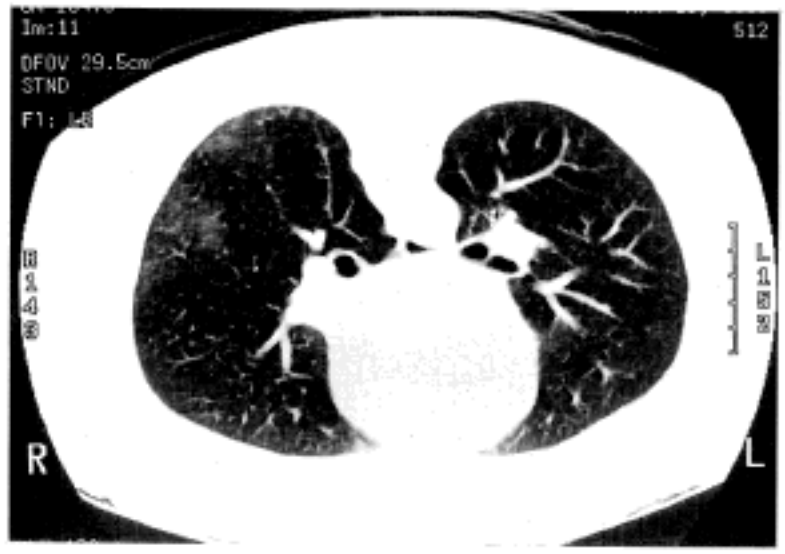

Fig. 3. The CT scan of the chest taken after menstruation showed improvement of previously noted consolidation.

병리소견 : 절제한 조직은 5×3×3 cm크기의 폐조직으로 육안적으로는 겉 표면의 일부에서 약간의 섬유화가 관찰되었으며, 연속 절편하였을 때 전반적으로 검붉은 색을 띠고 있었을 뿐 국소적인 경결등 다른 특이 병변은 발견되지 않았다. 조직학적으로 살펴보았을 때, 폐 실질내 일부에서 늑막과 떨어진 위치의 종말세기관지 벽에 섬모를 가진 원주형세포들로 이루어진 선구조와, 방추형의 간질세포로 구성된 소량의 자궁내막조직이 있었다. 주변 폐포내에는 헤모시데린을 세포질내에 가지고 있는 대식구와 적혈구들이 있어 오래된 출혈이 있음을 알 수 있었다. 자궁내막증을 보인 세기관지 내강내에는 기질화된 혈괴가 들어있는 부분도 있었다.

고 찰

자궁내막증식증은 대부분이 골반내에 존재하며, 드물게 복강외의 조직인 임파절, 충수돌기, 장, 담낭, 신장 등에 발생할 수 있으며 흉부에 발생하는

경우는 매우 드물다. 흉부 자궁내막증식증은 1938년에 Schwarz[2]에 의해 그 가능성이 제시된 이래 현재까지 영어권 논문에서 약 100여례가 보고되었으며, 이 중 월경성 객혈로 증상이 발현된 경우는 8례에 불과하다. 국내에서는 3례[3,4,5]가 보고되었으며, 이 중 조직학적으로 확진된 예는 1례[3]가 있다.

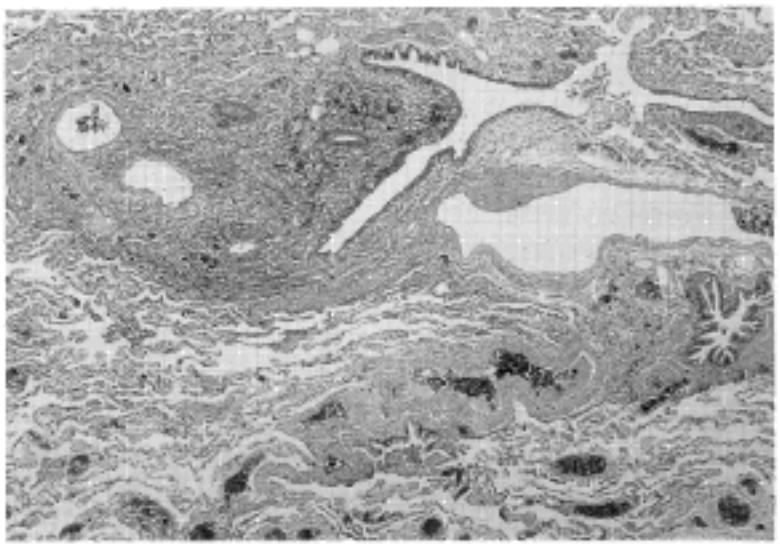

Fig. 4. Serial microscopic sections revealed ectopic endometrial tissue in the walls of a terminal bronchiole.

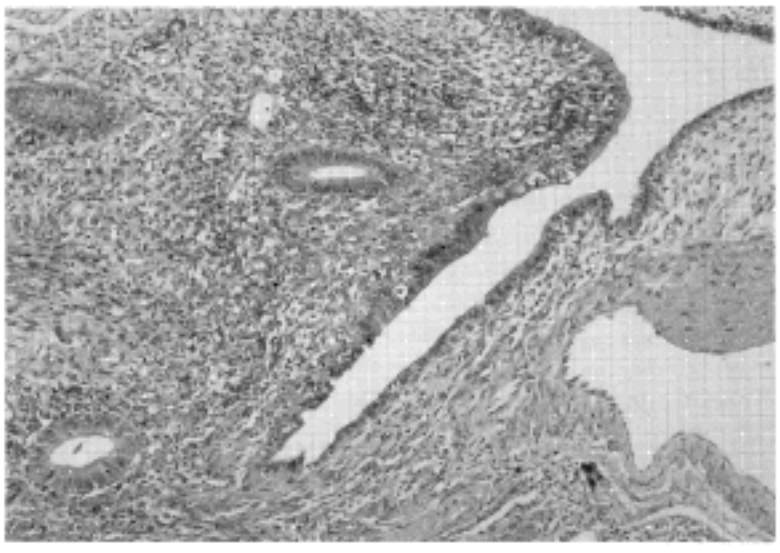

Fig. 5. The endometriosis of the bronchiolar wall was composed of columnar cell-lined glands, spindle cell stroma and hemorrhage.

흉부 자궁내막증식증의 기전은 아직 확실하게 알려져 있지 않으나 이를 설명하는 몇가지 가설이 거론되고 있다. 1)나팔관을 통해 역류한 자궁내막조직의 횡격막루를 통한 흉곽내로의 이주, 2)폐동맥을 통한 자궁으로부터 흉곽내로의 내막조직의 색전현상, 3)늑막중피세포의 자궁내막세포로의 화생 등이 그 예들이다.

Meigs's syndrome 과 hepatic hydrothorax 의 경우에는 횡경막 결손의 존재가 증명되었으며[6], 월경성 기흉 또는 혈흉에서도 이러한 선천적 결손이 있을 가능성이 높고 이 결손을 통하여 자궁내막조직이 흉곽내로 이동되었을 것으로 추측된다. 그러나 횡격막루를 통한 내막조직의 이주설은 폐실질, 종격동 또는 피부나 근육조직과 같은 곳에 위치한 자궁내막증식증을 설명하기는 어려우며 이러한 경우에는 자궁내막조직의 미세색전에 의해서 설명될 수 있겠다.

내막조직이 미세색전 된 후 자궁 이외의 곳에서 성장, 침윤, 확산할 수 있는 가능성은 Hobbs 와 Bortnick에 의해서 실험적으로 증명되었다[7]. Hobbs 등은 토끼의 귀 정맥에 자궁내막 조직을 주사한 후, 이들 주사된 조직이 폐실질 내에 착상하여 주기적 변화를 거치는 것을 증명하였으며 이러한 현상은 내막조직이 자궁이외의 곳에서도 생존 가능함을 뜻한다. 또한 제왕절개술 및 자궁 적출술 등의 수술적 조작이 색전의 선행요인으로 생각된다. 그러나 내막조직의 미세색전만으로는 대부분의 흉부 자궁내막증식증이 오른쪽에 일어난다는 사실을 설명하기는 어려우며, 이는 오히려 횡격막루설에 의해 설명 가능하다.

Yeh[8]는 당시까지 보고된 흉부 자궁내막증식증의 고찰을 통하여 늑막과 횡격막에 발생하는 자궁내막증식증과 기관지 및 폐실질내에 발생하는 자궁내막증식증에 각기 다른 기전이 관여한다고 하였다. 늑막-횡격막 병변은 골반내 자궁내막증을 동반하는 경우가 많고, 미산부의 젊은 여성에서 주로 우측에서 호발하며, 기흉 및 혈흉등의 증상으로 발현되기 때문에 이에 대한 설명으로 횡격막루를 통한 자궁내막조직의 착상이 관여한다고 하

였다. 기관지 및 폐의 병변은 주로 제왕절개술 등의 산부인과적 조작 후에 임신력이 있는 좀 더 나이 많은 여성에서 나타나며, 골반내 자궁내막증과 동반되는 경우는 드물다 하였다. 주로 월경성 객혈 또는 무증상의 소결절로 나타나며 이의 기전으로는 폐동맥을 통한 내막조직의 색전에 의한다 하였다.

흉부 자궁내막증식증의 임상 발현은 주로 기흉이나 흉막삼출등으로 나타난다. 1996년에 Joseph 등[1]은 당시까지 영어권 문헌에 보고된 110여례를 정리하여 발표하였는데, 이 보고에 의하면 기흉이 73%로 가장 많았으며 혈흉이 14%, 객혈이 7%이었고 무증상의 소결절이 6%라 하였다. 또한 흉부 자궁내막증식증은 주로 30대의 여성에서 흔하며 약 90%에서 생리 시작 후 24 - 48시간 사이에 폐증상이 나타났다. 우측 폐에 발생하는 경우가 86%이며 드물게 양측폐 모두에서 증상이 나타날 수 있다.

흉부 자궁내막증식증의 진단을 위해서는 무엇보다도 자세한 병력채취가 중요하다. 객혈, 기흉, 호흡곤란 등의 증상이 월경과 동반되어 반복적으로 발생되고 월경이 소실됨과 동시에 증상의 호전을 보이는 특징적인 임상 양상을 나타내며 이러한 증상을 보일 수 있는 결핵, 기관지확장증, 동정맥기형, 폐암 등의 질환과 감별진단을 요한다. 객혈이 있는 경우 기관지경검사및 폐동맥조영술을 시행하여 출혈위치를 발견하기도 하나 그 병소를 찾기는 어려우며, 대부분의 폐 실질의 자궁내막증식증은 큰 기관지정맥보다는 오히려 말단 폐실질에서 발생하는 경우가 많아 조직검사나 폐세척액검사로도 진단하기 어려운 경우가 많다[9,10]. 객혈이 있을 때 시행하지 않으면 단순 흉부촬영 또한 큰 도움이 되지못한다. 폐 실질의 자궁내막증식증의 진단에 있어 흉부 전산화 단층촬영이 유용하게 이용될 수 있는데, 월경 기간 동안과 월경이 끝난 후 흉부 전산화단층촬영을 실시하여 그 차이를 보는 것으로 위치판정 및 확진을 할수있다[11]. 이렇듯이 흉부 자궁내막증식증의 진단은 주로 특징적인 임상양상과 흉부 전산화단층촬영으로 이루어지며 조직학적 확진을 얻을 수 있는 경우는 약 30%에 지나지 않는다.

흉부 자궁내막증식증의 치료는 나이, 증세의 정도, 향후 임신의 필요성 여부 등을 고려하여 개별적으로 정하며 단순관찰에서부터 호르몬요법[4,12], 수술요법[13], 수술과 호르몬제제의 병용요법[14]등에서 선택한다.

호르몬요법으로는 GnRH agonist와 Danazol이 가장 많이 사용되고 있다. 이 중 GnRH agonist는 가성임신 상태를 유발하여 효과를 나타내며, Danazol은 스테로이드 호르몬으로서 난소의 호르몬 합성에 영향을 주며, 말단조직에서 성호르몬에 대한 세포질결합체에 성호르몬과 경쟁적으로 결합함으로써 가성폐경상태를 유발한다. 그러나 이러한 약물치료는 장기간 약물복용에 따르는 부작용이 심하며 치료 중단 이후 재발율이 높은 것으로 보고되어 있다[15]. 증상이 경미한 경우에는 추적 관찰하며 임신[5] 또는 폐경으로 증상의 호전을 기대할 수도 있다.

수술적 치료로는 기흉의 경우 흉막유착술을 가장 많이 시행하였으며, 폐실질내에 병변이 있는 경우는 전폐절제술 또는 폐엽절제술 등을 시행한다. 더이상 임신을 원하지 않는 경우에는 양측 난소와 전자궁적출술을 시행하기도하나 이러한 경우 수술후 estrogen replacement therapy에 의해 증상이 재발되는 경우가 있을 수 있다[1].

본 예에서는 흉부 전산화단층촬영으로 병소를 확인한 결과 다발성 병변으로 폐엽절제술만으로는 치료가 불가능하였고, 우측 전폐엽절제술을 시행하기에는 너무 지나친(over-treatment)것으로 생각되어 부분폐엽절제술을 시행하였다. 부분폐엽절

제술을 이용하여 치료된 경우는 아직 보고된 바가 없으며, 자궁내막증식증 병변의 병소 확인 및 절제 범위를 정하는데 어려움을 경험하였다. 수술 소견상 우폐 상엽과 하엽의 불완전한 분리를 보였는데, 이 때문에 해부학적으로 다른 우폐 상엽 후분절과 하엽 상분지엽에 동시에 병변이 존재한 것이 아닌가 생각된다.

요 약

저자들은 반복적인 월경성 객혈을 주소로 내원한 35세 여자 환자에서 흉부 전산화 단층촬영으로 병소를 확인한 후 부분폐엽절제술로 치유한 우측 폐실질내의 자궁내막증식증을 경험하였기에 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1) Joseph J, Sahn SA : Thracic endometriosis syndrome : New observations from an analysis of 110 cases. Am J Med **100** : 164, 1996
2) Schwarz OH, Counseller VS : Endometriosis ; A Clinical and Surgical Review. Am J Obstet Gynecol **36** : 887, 1938
3) 배덕수, 조경훈, 홍순기, 이병익, 김필수, 이효표 : 흉막 자궁내막증 1예, 대한산부인과학회지 **31** : 1150, 1988
4) 백상현, 이경주 : 폐실질의 자궁내막증식증 1예, 결핵 및 호흡기질환 **38** : 384, 1991
5) 김인한, 장동섭, 박태병, 고광곤, 조철호, 박찬섭, 이창훈 : 월경성 객혈의 흉부 단층촬영, 결핵 및 호흡기질환 **41** : 558, 1994
6) Lieberman FL, Hidemura R, Peters RL, Reynolds TB : Pathogenesis and treatment of hydrothorax complicating cirrhosis with ascites. Ann Intern Med **64** : 341, 1966
7) Hobbs JE, Bortnick AR : Endometriosis of lungs ; An Experimental and clinical study. Am J Obstet Gynecol 40 : 832, 1940
8) Yeh TJ : Endometriosis within the thorax ; Metaplasia, implantation, or metastsis?. J Thorac Cardiovasc Surg **53** : 201, 1966
9) Rodman MH, Jones CW : Catamenial hemoptysis due to bronchial endometriosis. NEJM **266** : 805, 1962
10) Johnson WM III, Tyndal CM : Pulmonary endometriosis ; Treatment with danazol. Am J Obstet Gynecol **69** : 506, 1987
11) Guidry GG, George RB : Diagnostic studies in catamenial hemoptysis. Chest **98** : 260, 1990
12) Elliot DL, Barker AF, Dixon LM : Catamenial hemoptysis ; New methods of diagnosis and therapy. Chest **87** : 687, 1985
13) Kristiansen K, Fjeld NB : Pulmonary endometriosis causing haemoptysis ; Report of a case treated with lobectomy. Scand J Thor Cardiovasc Surg **27** : 113, 1993
14) Hibbard LT, Schumann WR, Goldstein GE : Thoracic endometriosis ; A review and report of two cases. Am J Obstet Gynecol **140** : 227, 1981
15) Harkway PS, Eichenhorn MS : Catamenial hemoptysis ; A case report. Henry Ford Hosp Med J **34** : 68, 1986