

□ 증 례 □

흉강경술로 제거한 폐 자궁내막증 (Pulmonary Endometriosis) 1예

제주한국병원 내과, 성균관대학교 의과대학 삼성서울병원
내과학교실 호흡기내과[†], 병리과[‡], 흉부외과[§]

함형석, 정만표[†], 이병욱, 한경훈,
김호중[‡], 한정호[‡], 심영목[§], 권오정[†]

=Abstract=

A Case of Pulmonary Endometriosis Resected by Video-Assisted Thoracoscopic Surgery

Hyoung Suk Ham, M.D., Man Pyo Chung, M.D.[†], Byung-Wook Lee, M.D.,
Kyung Hoon Han, M.D., Hojoong Kim, M.D.[†], Joung-ho Han, M.D.[‡],
Yong Mog Shim, M.D.[§], O Jung Kwon, M.D.[†]

*Department of Medicine, Hankook General Hospital, Jeju, Korea,
Division of Pulmonary and Critical Care Medicine[†], Department of Medicine, Pathology[‡],
and Thoracic Surgery[§], Samsung Medical Center,
Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea*

Catamenial hemoptysis is a rare condition caused by thoracic endometriosis that presents as tracheobronchial or pulmonary endometriosis. While hormonal treatment may cause virilization and sterility, due to the antiestrogenic effect, its surgical removal via thoracotomy is a particularly invasive procedure and is not recommended as the first choice treatment in young woman. Successful surgical removal by video-assisted thoracoscopic surgery (VATS) has recently been reported, and may be indicated for young patients who at some stage would like to become pregnant.

Herein, a case of a 25-year-old unmarried woman with catamenial hemoptysis, cured by VATS, is reported. (Tuberculosis and Respiratory Diseases 2004, 56:542-549)

Key words : Catamenial hemoptysis, Pulmonary endometriosis, Thoracoscopic surgery.

Address for correspondence:

Man Pyo Chung, M.D.

Division of Pulmonary & Critical Care Medicine, Department of Medicine, Samsung Medical Center,
Sungkyunkwan University School of Medicine, 50 Ilwon-dong, Kangnam-ku, Seoul, 135-710, Korea
Phone : 02-3410-3423 Fax : 02-3410-3849 E-mail : mpchung@smc.samsung.co.kr

서 론

흉부 자궁내막증(Thoracic endometriosis)은 늑막, 기관지 및 폐실질 내에 생기는 이소성 자궁내막증으로서, 이 중 폐실질 내에 생기는 폐 자궁내막증(pulmonary endometriosis)은 임상적으로 생리시 객혈을 일으키는 흔하지 않은 질환이다. 생리 때 객혈이 발생하여 수술적 제거를 한 경우에 절제된 폐조직에서 자궁내막을 확인할 수 있는 경우는 1/3정도이고, 선조직(gland) 또는 간질조직(stroma)이 발견되면 확진이 되지만 미세혈관의 확장, 폐포 내 출혈 및 혈철소함유 대식세포만 확인되어 반복적인 출혈이 있었음을 간접적으로 증명함으로써 진단할 수 있다¹.

폐 자궁내막증의 치료로는 약물요법과 수술적 치료가 있는데, 약물요법은 항에스트로젠 효과 때문에 임신을 원하는 경우에는 바람직한 치료법이 아니고, 수술적 제거는 과거 개흉술을 통해 주로 이루어졌으나 최근 흉강경을 통해 절개를 최소화하여 수술한 증례가 외국에서 보고되어²⁻⁴ 젊은 미혼 여성에게 특히 좋은 수술 방법으로 추천할 수 있다고 사료된다. 국내에서도 폐 자궁내막증에 관하여 약물치료와 수술적 절제술로 치료한 보고가 있으나⁵⁻⁸, 흉강경술로 성공적인 치료를 시행한 경우는 국내에서 처음이기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 25세 여자

주 소 : 반복적인 생리시 객혈

현병력 : 내원 2년 전부터 시작된 생리시 객혈을 주소로 내원하였고 객혈은 그 동안 매달 생리기간 중에 발생하였다. 객혈은 생리가 시작되는 날에 발생하여 생리기간 내에 지속되다가 생리가 끝나는 시기보다 2-3일전에 사라지거나, 혹은 생리가 끝나

는 동시에 사라지는 양상이었고, 가장 많이 배출되는 양은 10cc/일 미만이었다. 객혈이 있을 때 흉통이나 호흡곤란 등의 동반되는 증상은 없었고, 월경통은 없었다.

과거력 : 내원 3년 전부터 3번의 자연 유산 경험이 있었다. 기타 결핵이나 기관지확장증 등의 병력은 없었고, 류마티스 질환 등으로 치료 받았던 병력도 없었다.

사회력 : 흡연력은 없었고, 무직이었으며 다른 특이 사항은 없었다.

이학적 소견 : 객혈이 없을 당시 활력 징후는 혈압 130/80 mmHg, 맥박수 분당 65회, 호흡수 분당 20회, 체온 36.2°C이었으며, 생리 기간 중 객혈이 있을 때도 혈압은 130/82 mmHg, 맥박수 분당 64회, 호흡수 분당 20회, 체온 36.7°C에 육안적으로 급성 병색의 소견 없이 전신 상태는 양호하였다. 객혈이 있을 당시 흉부 청진상 수포음이나 천명음 없이 호흡음은 깨끗하였고 심잡음도 들리지 않았다. 복부와 하지 등의 다른 이학적 검사 소견에서 이상 소견은 없었다.

검사실 소견 : 객혈이 있을 당시, 말초혈액 검사상 백혈구는 $4,400/\text{mm}^3$, 혈색소 12.1 g/dl, 헤마토크리트 37.0%, 혈소판 $147,000/\text{mm}^3$ 이었고, PT 0.97 INR, aPTT 35.6초였다. 그 외 간기능 검사, 신장기능 검사, 혈청 전해질 검사 및 요화학 검사는 정상이었다. 폐기능 검사상 노력성 폐활량 3.18 L (예측치의 80%), 노력성 1초 호기량 3.03 L (예측치의 94%), FEV₁/FVC 95%였다.

방사선 소견 : 생리기간 동안 객혈이 있을 때에 검사한 단순 흉부촬영상 특이 소견은 없었으나, 흉부 전산화단층촬영상 좌상엽 후분절에 약 2.5cm의 간유리 음영이 있었고, 좌하엽 측기저분절(latero-basal segment) 및 우하엽의 상분절에도 약 1.0cm의 간유리 음영이 있었다(Fig. 1A). 생리가 없었던 때에 검사한 흉부 전산화단층촬영에서는 이 소견은 사라져서 전혀 관찰되지 않았고(Fig. 1B), 두

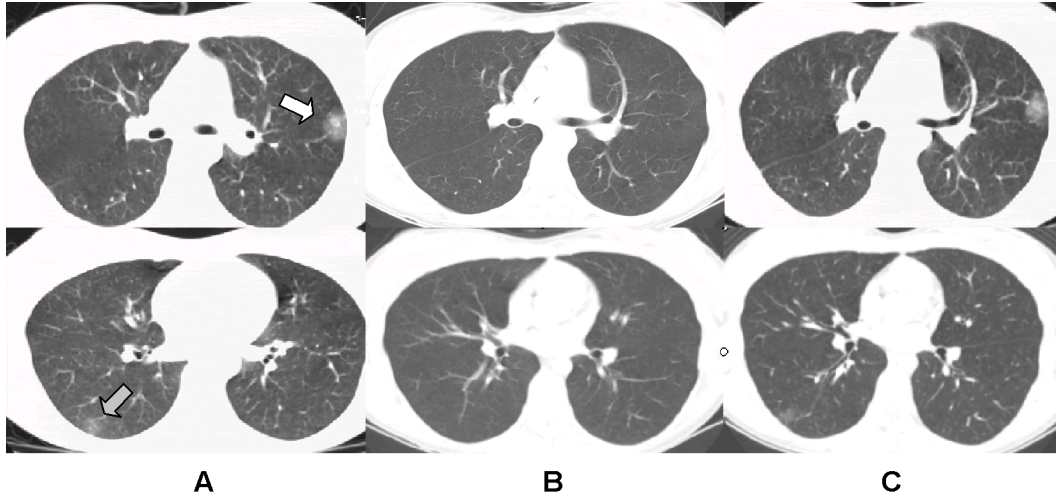


Fig. 1. **A.** Chest CT scan obtained during the patient's menstrual period shows ground glass opacities at anterior segment of the left upper lobe (white arrow) and superior segment of the left lower lobe (gray arrow). **B.** Chest CT obtained during the intermenstrual period shows normal finding. **C.** The finding of chest CT obtained again during the menstrual period was similar to Figure 1A.

달 후 생리를 하면서 다시 객혈을 하여 수술 직전에 시행한 흉부 전산화단층촬영에서도 이전과 같은 부위에 똑같은 양상의 병변이 관찰되었다(Fig. 1C).

기관지내시경 소견 : 생리를 하면서 객혈이 있을 때 시행한 기관지내시경 검사상 좌상엽 후분절에서 출혈이 되는 것을 관찰할 수 있었으나(Fig. 2), 다른 부위에서는 출혈의 소견이 없었으며 그 외 다른 특이 소견은 없었다. 기관지내시경을 이용한 세척액 검사에서 자라는 세균은 없었고 항산균 도말 및 배양검사는 음성이었으며 세포진 검사에서도 이상 소견은 없었다.

수술 소견 : 임상적으로는 폐 자궁내막증에 의한 반복적 객혈로 판단되었지만 젊은 미혼 여성이었기 때문에 약물치료는 할 수 없었고, 흉부 전산화단층촬영 소견에서 양 쪽 폐에 병변이 있어 개흉술을 통해 병변을 절제하는 것은 흉터가 많이 생기면서 폐기능도 상당히 저하될 우려가 높아 시행



Fig. 2. Active bleeding was noticed at the upper division of the left upper lobe on bronchoscopy during the menstrual period of the patient.

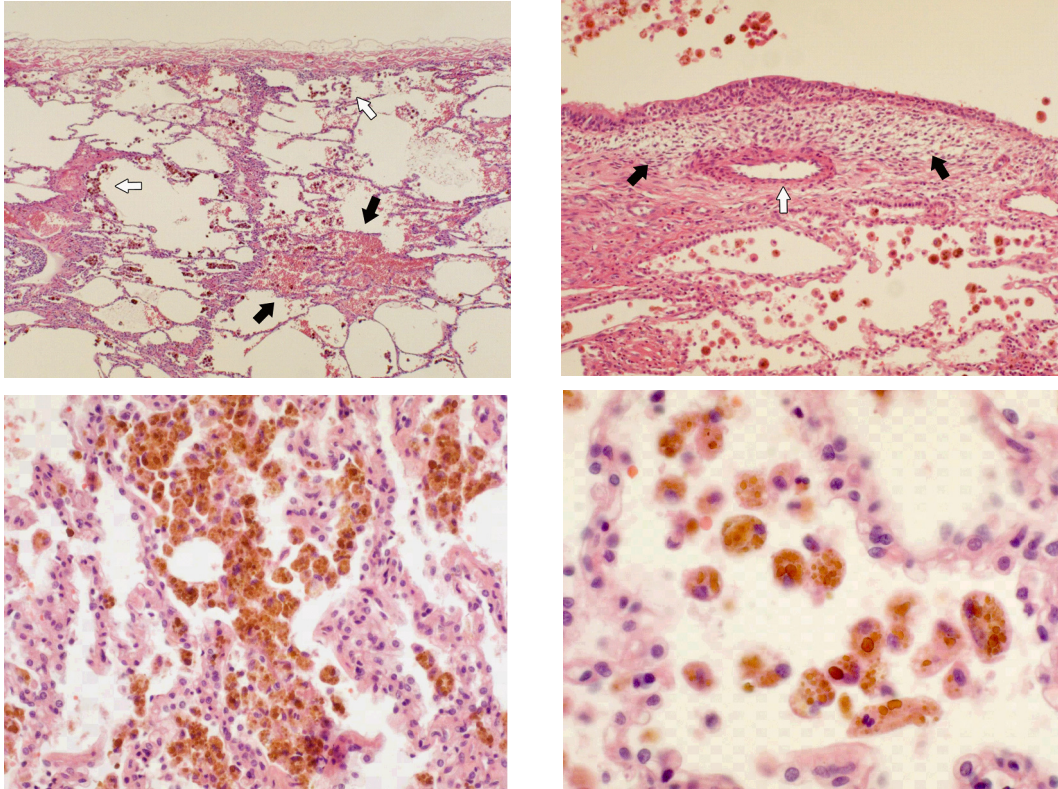


Fig. 3. **A.** Histologic section shows intraalveolar hemorrhage (arrows) and aggregates of hemosiderin-laden macrophage (white arrows) (H&E, x16). **B.** A focus of thin epithelial lining and endometrial-type stroma (arrows) at a bronchiole. Stromal blood vessels (white arrow) and intraalveolar macrophages are also apparent (H&E, x200). **C & D.** Aggregates of hemosiderin-laden macrophage (H&E, x200, x400 respectively)

하기 곤란하였다. 따라서 실제로 생리를 하면서 객혈을 할 때에 흉강경을 통해 병변을 육안으로 확인하면서 병변 부위만 절제하기로 결정하였고 환자가 다시 생리와 함께 객혈을 하면 응급실을 방문하기로 하였다. 퇴원 후 18일째에 생리를 하면서 다시 객혈이 시작되어 응급실을 방문하였고, 생리 시작 4일째 비디오 흉강경을 이용한 수술을 시도하여 양 쪽 폐 병변을 순차적으로 한꺼번에 제거하였다. 먼저 좌측 병변으로 접근하여 흉부 전산화 단층촬영에서 이상을 보였던 부위와 일치하는 좌상엽 후분절과 좌하엽 측기저분절의 갈색 병변을 췌기 절제(wedge resection) 하였고, 자세를 바꾸

어 우하엽 상분절의 갈색 병변을 육안으로 확인한 뒤 췌기 절제하였다. 흉강 내에 흉수나 유착은 없었으며 수술 동안 마취와 관련된 문제나 수술 후 다른 합병증 없이 수술 8일째에 환자는 퇴원하였다.

조직병리 소견 : 생검 조직의 단면은 출혈로 인한 암갈색의 반점을 보였으며, 광학현미경 소견상 폐포강 내에 혈철소를 함유한 대식세포(hemosiderin-laden macrophage)를 다수 관찰할 수 있었다(Fig. 3A). 세기관지 주위와 격막의 혈관들은 확장되어 있었다. 일부 세기관지 주변에서 자궁내막 증에 합당한 상피세포와 버팀질과 두꺼운 벽을 갖는 소동맥을 확인할 수 있었다(Fig. 3B).

수술 후 경과 : 수술 후 3개월째 생리 기간 동안 객혈의 재발 없이 건강하게 잘 지내고 있다.

고 찰

생리기간의 객혈은 드문 증상으로, 기관지 내부에 생긴 기관지 자궁내막증(tracheobronchial endometriosis)이나 폐실질 내에 생긴 폐 자궁내막증에 기인한다. 폐 자궁내막증은 1956년 Lattes등²⁻⁴에 의해 처음 보고된 이후 영어 문헌으로는 21례⁴가 보고되었고, 국내에서는 4례⁵⁻⁸가 보고된 바가 있다.

폐 자궁내막증의 병인론에 대하여 아직까지 알려진 바가 적으나, Park 등²⁻⁴은 자궁내막의 일부가 인공유산이나 제왕절개에 의한 노출된 혈관을 통해 혈행성 이동을 하다가 폐 혈관계에 걸리는 미세색전증(microembolization)으로 설명하였고, 나팔관을 통해 자궁내막 조직이 역류하여 횡경막을 통해 흉곽내로 이동하거나 늑막 중피세포가 자궁내막세포로 화생(coelomic metaplasia)할 수도 있는 것으로 알려져 있다^{2-4,9}. Yeh 등⁹은 늑막 및 횡경막에 생기는 경우 골반내 자궁내막증을 동반하는 경우가 많아 나팔관을 통한 역류에 의한 기전에 의해 발생하는 것으로 설명하였고, 기관지 및 폐실질 병변의 경우 주로 산부인과적인 수술과 관련된 미세 색전증이 주된 기전일 것으로 주장하였으나 기전은 아직도 논란이 있는 상태이다. 본 증례의 경우도 환자의 과거력에서 3번의 인공유산을 받은 것이 폐 자궁내막증의 위험 인자로 여겨진다.

폐 자궁내막증은 생리와 함께 객혈이 발생하면서 흉부 전산화단층촬영을 통해 출혈이 의심되는 부위가 발견되지만 생리가 없을 때는 사라져 보일 때에 진단할 수 있다^{1,10}. 흉부 단순촬영은 객혈이 있을 때도 정상 소견인 경우가 많고, 흉부 자기공명영상이나 혈관조영술은 다른 질환과의 감별에는 도움이 되지만 일차적인 진단에는 크게 도움이 되지 못한다². 또한 조직소견에서 폐 실질내에 자궁내막 선조직과 간질 조직을 포함한 자궁 내막조직

을 찾을 수 있는 경우는 약 1/3로 보고 되어 있어, 반드시 조직학적으로 폐실질내 자궁내막조직이 확인되어야만 확진이 되는 것은 아니고, 미세혈관의 확장, 폐포내 출혈 및 혈철소 함유 대식세포를 확인하는 경우에 반복적인 출혈을 의미함으로써 간접적으로 진단할 수 있다¹. 본 증례의 경우 생리기간이 아닌 때는 흉부 전산화단층촬영에서 폐 병변을 전혀 찾을 수 없었으나 생리 기간 중 객혈이 있을 때는 흉부 전산화단층촬영에서 좌우측 폐에 다발적 간유리 음영이 관찰되었고, 이러한 병변이 내원 두 달 전에 타 의료기관에서 검사한 흉부 전산화단층촬영 소견과 일치하며 흉강경을 통해 출혈성 병변을 육안적으로 확인하여 절제된 폐 조직에서 자궁내막 조직을 확인하였을 뿐 아니라, 반복적인 출혈을 의미하는 미세혈관의 확장, 폐포내 출혈 및 혈철소 함유 대식세포를 확인했다는 점에서 폐 자궁내막증으로 진단할 수 있었다.

본 증례에서는 자궁내막 조직을 확인할 수 있었으나 절제된 폐조직에서 폐실질 내에 자궁내막 조직을 확인할 수 있는 경우는 많지 않다. 저자들이 영어권 문헌과 국내 발표 증례 중 수술을 받았던 증례만 분석한 결과 자궁내막 조직이 확인된 경우는 46.2%(6/13)로 조사되었다(Table 1). 자궁내막증이 생기는 가장 흔한 위치인 난소에 대한 연구¹¹에서는 생리가 시작되기 2-4일 전부터 난소에서 난포호르몬(estrogen)과 황체호르몬 (progesterone)의 분비가 감소되면서 자궁내막 혈관이 수축하고 내막의 선조직 및 간질조직의 파괴가 나타나면서 쇠퇴성 출혈(withdrawal bleeding)이 나타나기 때문에 수술 시기가 늦어지면 자궁내막 조직을 얻지 못하는 경우가 많은 것으로 알려졌다. 폐 자궁내막증의 경우 폐 말초부위 병변이 많아 기관지폐포세척술 (bronchoalveolar lavage)을 통해 자궁내막 조직을 얻기가 힘들고 기관지 자궁내막증인 경우는 초기에 기관지내시경을 시행하여 조직학적으로 자궁내막을 증명한 보고⁸가 있어 병변의 위치와 조직을 얻는 시기가 조직학적 확진 여부에 관여할 것

— A case of pulmonary endometriosis resected by VATS —

으로 생각된다. 본 증례의 경우도 말초부위 병변이기 때문에 기관지폐포세척액에서 자궁내막 조직을 확인할 수 없었지만, 수술은 생리를 시작한 지 4일째에 시행하였기 때문에 자궁내막 조직을 확인할 수 있었던 것으로 추정된다.

폐 자궁내막증의 치료로는 약물 요법과 수술적 제거가 있다. 약물 치료로는 danazol과 GnRH (gonadotrophin releasing hormone) agonist가 사용되는데, danazole 및 GnRH agonist는 항에스트로젠 효과를 갖는 합성 스테로이드 호르몬제로서 부작용으로 남성화, 체중 증가 및 불임을 일으킬 수 있다¹. 수술적 제거는 과거에는 개흉술이 주로 시행되어 1차적인 치료방법으로 추천되지 않았으나, 최근 흉강경을 이용하여 절개를 최소화하여 수술적 제거를 시행한 증례들이 보고되었다²⁻⁴. 흉강경을 이용한 수술은 절개를 최소화할 뿐만 아니라 출혈부위를 근접하여 볼 수 있고 마취시간이 짧으며 입원기간이 단축되는 장점이 있다⁴. 본 증례의 경우도 환자가 미혼이며 앞으로 임신을 원하였고 폐 병변도 양측 폐에 다발적으로 위치하여 약물 치료나 개흉술을 통한 치료보다는 흉강경을 이용한 췌기 절제술을 시행하였고, 이러한 시술로 성공적인 치료 효과를 거둔 것은 국내에서 처음이다. 결론적으로 폐 자궁내막증은 특징적인 임상 증상과 흉부 전산화단층촬영 소견으로 임상적 진단이 중요하며, 임신을 원하는 젊은 여성에서 병변이 폐 말초부위에 있으면 약물치료나 개흉술보다는 절개를 최소화하는 흉강경을 이용한 수술이 좋을 것으로 사료된다.

요 약

폐 자궁내막증은 월경시 객혈을 일으키는 드문 질환이다. 반복적으로 월경기간 중 객혈이 있으면서 흉부 전산화단층촬영 소견상 출혈이 의심되는 병변이 있으면 임상적으로 진단을 할 수 있다. 치료로는 약물치료와 수술적 치료가 있으나, 약물은 항

에스트로젠 효과를 나타내므로 임신을 원하는 미혼 여성에게는 적용할 수가 없고 개흉술을 통한 수술적 제거는 흉터가 많이 남는 단점이 있다. 저자들은 폐에 다발적으로 발생한 폐 자궁내막증이 있는 미혼 여성에게 흉강경술을 이용한 수술적 제거 1례를 경험하였기에 이를 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Hertzanu Y, Heimer D, Hirsch M. Computed tomography of pulmonary endometriosis. *Comput Radiol* 1987;11:81-4
2. Cassina PC, Hauser M, Kaci G, Bruno I, Soren S., George K., et al. Catamenial hemoptysis: diagnosis with MRI. *Chest* 1997;111:1447-50
3. Shimizu, Nakanishi, Yoshino, Yashimoto. An endometrial nodule in lung without pelvic endometriosis. *J Cardiovasc Surg* 1998;39:867-8
4. Tsukasa Inoue, Yoshimochi K, Yoshihiro K, Masaki A., Tetsuro T, Makoto. et al. Video-assisted thoracoscopic surgery for catamenial Hemoptysis. *Chest* 2001;120:655-8
5. 배상현, 이경주. 폐실질의 자궁내막증식증 1예. 결핵 및 호흡기질환 1991;38:384
6. 최준호, 김문중, 박완배. 폐실질의 자궁내막증 1예, 대한산부인과학회잡지 1995;38:13-8
7. 이선민, 정성철, 김상돈, 마경애, 김영준, 송영구 등. 월경성 객혈로 발현되고, 부분폐엽절제술로 치료된 폐실질의 자궁내막증식증 1예. 결핵 및 호흡기질환 1997;44:197-202
8. 김기중, 조윤형, 최병기, 최의영, 장운수, 김형중 등. 폐자궁내막 증식증. 결핵 및 호흡기질환 1999;47:389-93
9. Yeh TJ. Endometriosis within the thorax: Metaplasia, implantation or metastasis?. *J*

- Thorac Cardiovasc Surg 1966;53:201
10. Joseph J, Sahn SA. Thoracic endometriosis syndrome: new observations from an analysis of 110 cases. Am J Med 1996;100:164-70
 11. 부인과학. 대한산부인과학회. 개정 3판; 1987
 12. Wood DJ, Krishnan K, Stocks P, Morgan E, MJ Ward. Catamenial Hemoptysis: a rare case. Thorax 1993;48:1048-9
 13. Kristianen K, Fjeld NB. Pulmonary endometriosis causing haemoptysis. Report of a case treated with lobectomy Scand J Thorac Cardiovasc Surg. 1993;27(2):113-5
 14. Douglas B, Flieder, Cesa A, Morgan, William D, Travis. et al. Pleuro-pulmonary endometriosis and pulmonary ectopic deciduosis: clinicopathologic and immunohistochemical study of 10 cases with emphasis on diagnostic pitfalls. Human Pathology 1998;29:1495-503
 15. Fred Weber. Catamenial Hemoptysis. Ann Thorac Surg. 2001;72:1750-1
-