

A CASE OF LAPAROSCOPIC MANAGEMENT OF UNICORNUATE UTERUS WITH RUDIMENTARY HORN AND UNILATERAL EXTENSIVE ENDOMETRIOSIS

Ji Eun Sung, MD, Chan Eun Park, MD, Min Sun Kyung, MD, Soo Ran Choi, MD, Yong Cho, MD, Eu Sun Ro, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Hallym University College of Medicine, Chuncheon, Korea

The unicornuate uterus with a rudimentary horn is a very rare congenital anomaly of the female genital system. We have experienced a case of an unicornuate uterus with a left non-communicating functional rudimentary horn associated with agenesis of an ipsilateral kidney, progressive dysmenorrhea, hematometra, hematosalpinx and extensive endometriosis in a 13-year-old girl and treated by laparoscopy. We report this case with relevant literatures.

Keywords: Unicornuate uterus; Endometriosis; Laparoscopy; Rudimentary horn

단각자궁기형은 매우 드문 생식기계 기형의 일종으로 한쪽 뿔기관은 발달되고 반대측 뿔기관은 발달이 불완전하거나 아주 안될 경우에 발생된다[1]. 이 경우 상부요로계통의 기형을 흔히 동반하는데 동반된 기형 중에는 일측 신장결손이 가장 많은 것으로 보고되고 있다[2].

단각자궁기형은 반대측 뿔기관의 발달정도에 따라 흔적자궁각을 동반하거나 없는 경우, 자궁내막강을 가지고 있거나 없는 경우 그리고 내막강이 서로 교통성이 있거나 없는 경우 등 다양한 유형을 가진다. 이 중 흔적자궁각의 내막강이 비교통성의 경우 초경 이후에 점차 심해지는 골반통, 흔적자궁혈종, 난관혈종, 자궁내막증, 그리고 드물게는 흔적자궁임신 등의 여러 합병증이 초래될 수 있다[3,4].

그러므로 진단이 되면 조기에 수술적 치료가 필요하다. 최근에는 복강경에 의한 최소침습수술 방법이 시도되고 있다.

본 저자들은 13세 소녀가 심한 하복부 동통으로 본원에 내원하여 좌측 신장무형성증을 동반한 단각자궁기형과 흔적자궁혈종, 난관혈종, 심한 유착, 그리고 난관과 난소에 심한 자궁내막증으로 진단되어 복강경을 통하여 치료한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 김 O O, 13세

주 소: 내원 5일 전부터 시작된 심한 하복부 동통

산과력: 0-0-0-0

월경력: 마지막 생리일은 2010년 11월 8일이었고 초경은 2009년 3월 (12세)에 시작되었으며 주기는 규칙적이었고 양은 적당하였으며 기간은

약 5일 정도였다.

기왕력과 가족력: 특이사항 없었다.

현병력: 2010년 12월 15일 내원 5일전부터 시작된 심한 하복부 동통으로 응급실에 내원하였다. 초경 이후 처음에는 생리통이 없었으나 내원 6개월 전부터 점차 생리통이 심해졌다.

경직장 초음파검사에서 우측 난소에 4.3×2.6 cm 크기의 증가된 내부음영의 낭종소견과 좌측 자궁부속기 부위에 6.5×5.6 cm 크기의 3개의 혼합성 음영의 낭종 소견이 발견되어 입원 치료가 권유되었으나 진료과정 중 동통이 완화되었고 산부인과 외래에서 진료받기를 원하여 귀가하였다. 2일 후 외래진료에서 입원 치료가 권유되었으나 통증이 많이 완화되었고 방학기간에 입원 치료를 원하였다. 그 후 2011년 1월 3일 입원하여 수술 전 평가와 검사를 시행 후 2011년 1월 8일 복강경수술

Received: 2011. 5.25. Revised: 2011. 7.22. Accepted: 2011. 7.26.

Corresponding author: Yong Cho, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Chuncheon Sacred Heart Hospital, Hallym University College of Medicine, Gyo-dong, Chuncheon 200-704, Korea

Tel: +82-33-240-5744 Fax: +82-33-252-9974

E-mail: ycho@hallym.or.kr

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2011. Korean Society of Obstetrics and Gynecology

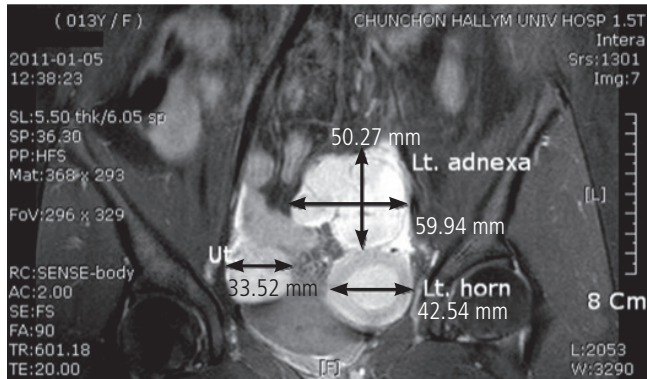


Fig. 1. Pelvic magnetic resonance imaging showed hematometra of left rudimentary horn, left hematosalpinx and left endometriosis. Ut, right unicornuate uterus; Lt., left; horn, rudimentary horn.

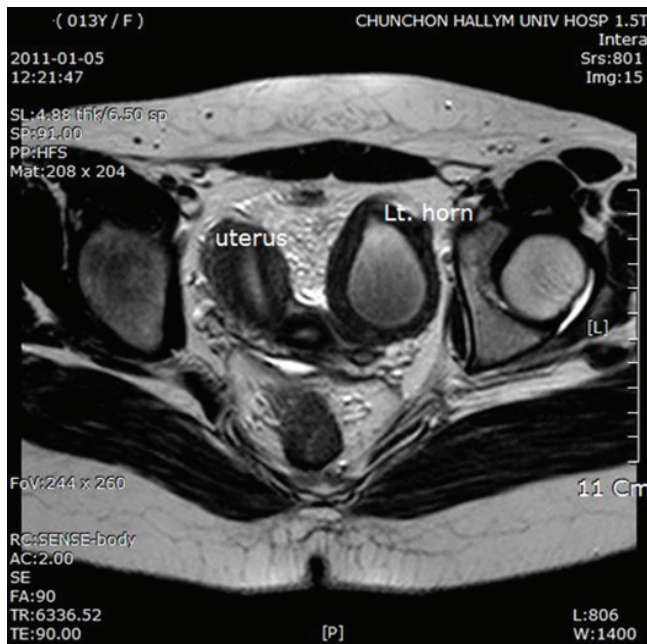


Fig. 2. Pelvic magnetic resonance imaging showed right unicornuate uterus, hematometra of left noncommunicating rudimentary horn. Lt. horn, left rudimentary horn.

이 시행되었다.

이학적 소견: 입원 당시 전신 상태는 양호하였고, 체중 68 kg, 신장은 153 cm 이었으며, 혈압은 100/70 mm Hg, 맥박수 86/분, 체온은 36.8°C, 호흡수는 20/분이었다.

검사 소견: 수술 전 혈액 소견은 hemog 12.7 gm/dL, hematocrit 38.3%, 백혈구 10,000/mm³이었으며, 일반생화학검사에서 blood urea nitrogen 8.3 mg/dL, creatinine 0.6 mg/dL로 정상이었으며, 요검사도 정상이었다. 흉부 X선검사와 심전도는 특이 소견 없었다. 응급실 내원 시 종양 표지자검사에서 CA-125는 405.1 U/mL로 증가되었다.

영상검사: 입원 시 시행한 경직장초음파검사에서, 좌측 자궁부속기에

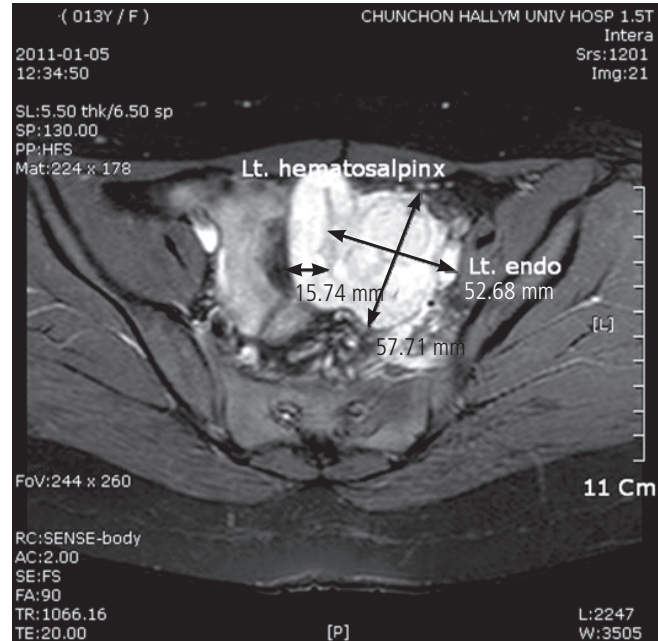


Fig. 3. Pelvic magnetic resonance imaging showed left hematosalpinx and left endometriosis. Lt., left; endo, endometriosis.

8.8×7.1 cm 크기의 2개의 내부 음영이 증가된 낭성 부분을 가지는 낭종성 종양 소견을 보였고 처음 응급실 내원 당시 초음파검사에서 보다 더 커진 양상을 보였다.

전산화단층촬영에서 우측 단각자궁(uniconuate uterus)과 좌측 비교통성 흔적자궁혈종(left noncommunicating rudimentary horn)이 의심되었고 우측 자궁부속기는 특이 소견 없었다. 좌측 자궁부속기 부위에 달팽이 모양으로 팽대된 좌측 난관혈종, 좌측 난소에서 내부 내용물에 약간의 증가된 음영의 낭종 소견이 보여 자궁내막증이 의심되었다. 좌측 신장이 보이지 않았고 우측 신장은 보상성 비후 소견을 보였다. 핵의학 영상검사에서도 좌측 신장은 보이지 않았다.

자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 촬영에서 우측 단각자궁과 좌측 비교통성 흔적자궁혈종, 달팽이 모양으로 크게 팽대된 좌측 난관혈종이 좌측 난소 자궁내막낭종을 감싸고 있는 양상을 보였다 (Figs. 1–3). 좌측 신장이 보이지 않았고 우측 신장은 보상성 비후 소견을 보였다.

수술 소견 및 수술방법: 전신마취하에 양와위(supine position)에서 제대 직하부에 5 mm trocar를 삽입하였다. 5 mm 내시경으로 복강을 관찰한 후 2개의 5 mm trocar를 좌, 우측 하복부에, 12 mm trocar를 정중선 하복부에 설치하였다. 내시경으로 복강을 관찰했을 때 우측 단각자궁을 보였고 우측 난소와 난관은 정상 소견이었다. 좌측 비교통성의 흔적자궁은 자궁강내혈종으로 우측 단각자궁보다 3배 정도 더 커져 있었고 서로 분리되어 있었다. 팽대된 좌측 난관혈종과 좌측 난소자궁내막낭종, 골반벽, S형결장, 직장들이 서로 심하게 유착되어 있었다(Fig. 4). 복강경용 바늘을 사용하여 구조물과 내용물을 확인하고 크기를 줄이기 위해 팽대된 좌측 난관과 흔적자궁에서 흡인을 시행하였고 내용물

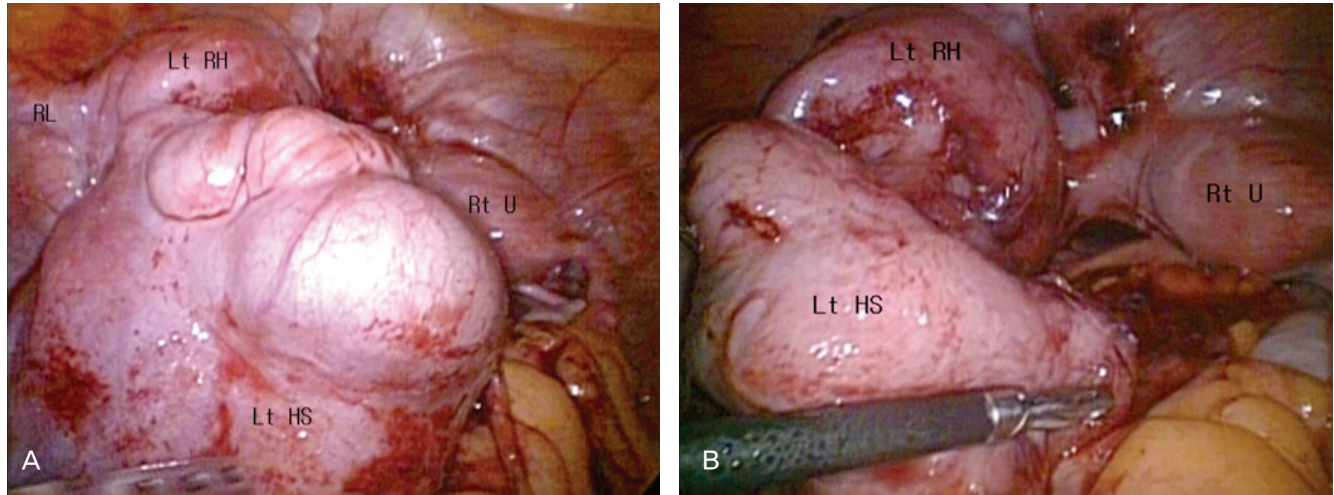


Fig. 4. (A) Laparoscopic view of right unicornuate uterus (Rt U), left rudimentary uterine horn with hematometra (Lt RH), large left hematosalpinx (Lt HS), and left round ligament (RL). (B) Laparoscopic view of right unicornuate uterus (Rt U), left rudimentary horn with hematometra (Lt RH), left hematosalpinx (Lt HS) after aspiration and partial adheolysis.

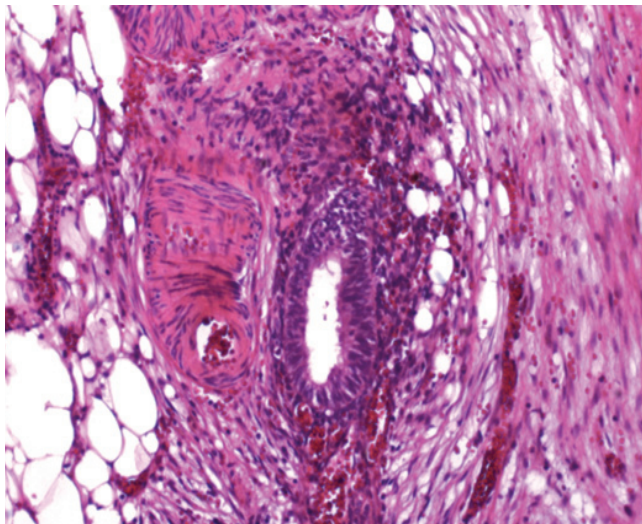


Fig. 5. Histologic finding of the left ovary shows endometriosis with stroma hemorrhage (H&E, ×100).

은 초콜릿 색깔의 진한 혈액이 흡인되었다. 유착은 양극성 겸자(bipolar coagulator), 단극성 복강경용 가위(monopolar endoscopic scissors)를 이용하여 둔한 박리와 예리한 박리(blunt and sharp dissection)로 유착을 제거한 후 양극성 겸자와 단극성 복강경용 가위를 이용하여 좌측 원인대를 자르고 흔적자궁, 난관, 내막종을 적출하였다. 하복부의 12 mm trocar를 통한 조직세절기(morcellator)를 이용하여 적출된 흔적자궁을 밖으로 꺼냈고 난관, 그리고 내막종을 배출하였다(Fig. 3). 그리고 생리적 식염수액으로 복강을 세척한 후 복강내 lactated ringer solution 1 L를 주입하고 수술을 끝냈다.

병리학적 소견: 좌측 흔적자궁은 자궁근층과 자궁내막조직이 존재하는 소견을 보였다. 좌측 난소 낭종은 자궁내막종을 보였고(Fig. 5), 난관은

벽이 두꺼워지고 출혈, 섬유화 소견과 자궁내막증 소견을 보였다.

수술 후 경과: 수술 후 특별한 합병증 없이 회복되었고 4일 후 퇴원하였다. 수술 후 생리통이 없어졌으며 수술 후 3개월이 지나 시행한 CA-125는 12.4 U/mL로 정상으로 회복되었다.

고 찰

자궁기형의 발생빈도는 전체 여성의 0.5% 정도, 임신능력이 있는 여성에서는 600명당 1명, 불임여성에서는 30명당 1명 정도로 발생하며 그 분포는 궁상형(arcuate) 7%, 격벽자궁(septate) 34%, 쌍각자궁(bicornuate) 39%, 중복자궁(didelphic) 11%, 단각자궁(unicornuate) 5%, 분절형 뿔러관 기관 형성 부전(hypoplastic/aplastic/solid and other forms) 4% 정도로 보고되고 있다[5].

단각자궁기형은 태생초기 한 쌍의 뿔러관이 발생하여 태생기 8주경 하부에서 융합하여 갈때기 모양이 되고, 태생기 14주경 단일 내측관을 형성하여 태생기 16주경에 내부의 벽이 소실되면서 단일 내강을 형성하여 자궁이 형성되는데 이러한 발생과정에서 일측의 뿔러관의 발달은 정상이고 반대측 뿔러관은 발달이 안되거나 불완전한 경우 발생한다[6]. 이러한 단각자궁기형은 반대측 뿔러관의 발달 정도에 따라 다양한 유형을 보일 수 있는데 흔적자궁각이 없거나 또는 흔적자궁각을 갖는 경우 자궁내강이 형성되거나 안되는 경우, 서로 교통성이 있거나 없는 경우 등 다양한 양상을 보인다. 이 중 흔적자궁각의 내막강이 비교통성인 경우는 단각자궁기형의 20-25%에서 발견된다[7].

뿔러관의 다양한 발육부전 기형에서 비교하게 기형을 흔히 동반하는데 일측 신장무형성증이 가장 흔하다고 보고하고 있으며 신장이 정상 위치보다 하부에 위치하거나 골반내신장, 또는 신장의 회전이상, 요관이 상 등이 올 수 있으며 통상 양측 뿔러관 중 발육부전이 심한 측과 동일

한 쪽에 잘 발생한다[2].

일측 신장결손이 있는 경우에도 생식기계 이상을 잘 동반하는데 70%에서 동반한다고 한다[6].

자궁기형은 골반진찰에서 발견될 수도 있으나 제왕절개분만 시, 불임 검사 또는 개복수술 시 우연히 발견되는 경우도 많다.

자궁기형의 형태를 진단하는 데 있어 골반진찰, 초음파검사, 자궁난관 조영술, MRI 등이 사용될 수 있는데 여러 검사를 결합함으로써 완벽한 해부학적인 구조를 파악할 수 있다.

자궁내막이 있으면서도 자궁경부와 질로 통하는 출구가 없는 독립된 자궁각을 갖는 형태의 비교통성 흔적자궁각은 자궁경부와 질의 기형이 보이지 않으므로 골반진찰로는 쉽게 간과될 수 있다.

수술 전 정확한 평가가 중요한데 폐쇄성 반질증(obstructive hemivagina)이 있는지 여부, 흔적자궁각이 연결된 형태, 서로 교통성이 있는지 여부, 자궁내막증, 비뇨기계 기형 동반 등을 파악하는 것이 중요하다.

MRI촬영은 여러 방향의 단면상을 볼 수 있고 자궁내부와 외부구조를 잘 볼 수 있어 질러관 자궁기형의 형태와 정도를 파악하는데 매우 유용하며 진단의 정확도를 100%로 보고하고 있다[8].

단각자궁기형의 경우 우측의 단각자궁을 가진 경우가 62%로 더 많은 것으로 보고하고 있다[9]. 단각자궁은 다른 자궁기형에 비해 자궁내막증이 발생할 가능성이 높다는 보고도 있다[10]. 단각자궁이 있는 환자의 33%에서 자궁내막증이 발생한다는 보고도 있다[11]. 흔적자궁각의 자궁내막 기능이 있으면서 반대측과 연결이 없으면, 월경혈과 자궁내막이 복강 내로 역류되어 복강내에 착상하여 자궁내막증이 초래되고 골반내 구조물의 유착으로 인하여 월경혈이 정체되면서 복통, 종괴 등의 임상 증세를 일으킬 수 있다. 흔적자궁각의 자궁내막 기능이 있으면서 반대측과 연결이 없는 경우에도 드물지만 정자가 골반강내에서 이동을 하여 흔적자궁각 임신이 될 수 있고 70%에서 임신 20주 이전에 파열이 되고 생명을 위협하는 복강내 대량출혈을 초래할 수 있다[12].

자궁기형의 치료 목적은 환자의 증상을 근절시키고 생식 능력을 최대한 보존시키는데 있다. 흔적자궁각을 동반한 단각자궁의 경우에 자궁각을 제거하는 것이 생식결과를 개선시킨다는 과학적인 증거는 없다는 보고가 있다[13].

단각자궁기형 중 흔적자궁각의 자궁내막 기능이 있으면서 반대측과 연결이 없는 경우는 자궁내막증, 일차성 불임, 자궁내 혈종, 난관혈종, 그리고 드물게는 자궁각 임신 등 여러 산과적, 부인과적 합병증이 올 수 있다[4]. 그러므로 자궁내막 기능이 있는 흔적자궁각을 동반한 단각자궁 기형의 경우는 진단이 되면 조기에 수술적인 치료를 해주는 것이 바람직하다.

수술 시 흔적자궁 제거와 함께 자궁외 임신 가능성 때문에 동측 난관도 제거한다. 수술은 요관 손상의 위험성이 있는데 특히 자궁내막증을 동반하거나 중복자궁기형의 경우에 수술 시 세심한 주의가 필요하다. 그러나 본 예에서는 좌측 신장무형성증이 있어서 좌측 난소내막종 수술 시 요관 손상의 위험성은 없었다.

수술적 치료는 최근에는 최소침습적 방법인 복강경수술에 의해 이루어지고 있다.

복강경을 이용하여 흔적자궁각을 제거하는 수술을 시행한 예가 1990년 Canis 등[14]에 의하여 처음 보고된 후, 단각자궁의 흔적자궁각을 복강경을 이용하여 치료한 증례들이 보고되고 있다[7,15].

복강경수술은 자궁 기형의 진단은 물론 기존의 개복수술에 비해 최소 침습, 출혈의 감소, 적은 통증, 빠른 회복, 입원기간 단축 등 많은 이점이 있어 복강경수술을 적극적으로 고려해야 할 것으로 생각된다.

본 저자들은 심한 골반통이 있었던 13세 소녀에서 우측 단각자궁, 좌측 흔적자궁각기형, 좌측 신장무형성증, 흔적자궁내 혈종, 난관혈종, 심한 유착 그리고 심한 자궁내막증을 진단하고 복강경으로 유착박리술과 흔적자궁각혈종, 난관혈종, 자궁내막증 낭종을 제거한 1예를 경험하였기에 간단한 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- Buttram VC Jr, Gibbons WE. Mullerian anomalies: a proposed classification. (An analysis of 144 cases). *Fertil Steril* 1979;32:40-6.
- Woolf RB, Allen WM. Concomitant malformations; the frequent, simultaneous occurrence of congenital malformations of the reproductive and urinary tracts. *Obstet Gynecol* 1953;2:236-65.
- Heinonen PK. Clinical implications of the unicornuate uterus with rudimentary horn. *Int J Gynaecol Obstet* 1983;21:145-50.
- Jayasinghe Y, Rane A, Stalewski H, Grover S. The presentation and early diagnosis of the rudimentary uterine horn. *Obstet Gynecol* 2005;105:1456-67.
- Nahum GG. Uterine anomalies. How common are they, and what is their distribution among subtypes? *J Reprod Med* 1998;43:877-87.
- Wiersma AF, Peterson LF, Justema EJ. Uterine anomalies associated with unilateral renal agenesis. *Obstet Gynecol* 1976;47:654-7.
- Fedele L, Bianchi S, Zanconato G, Berlanda N, Bergamini V. Laparoscopic removal of the cavitated noncommunicating rudimentary uterine horn: surgical aspects in 10 cases. *Fertil Steril* 2005;83:432-6.
- Pellerito JS, McCarthy SM, Doyle MB, Glickman MG, DeCherney AH. Diagnosis of uterine anomalies: relative accuracy of MR imaging, endovaginal sonography, and hysterosalpingography. *Radiology* 1992;183:795-800.
- Heinonen PK. Unicornuate uterus and rudimentary horn. *Fertil Steril* 1997;68:224-30.
- Fedele L, Bianchi S, Di Nola G, Franchi D, Candiani GB. Endometriosis and nonobstructive mullerian anomalies. *Obstet*

- Gynecol 1992;79:515-7.
11. Olive DL, Henderson DY. Endometriosis and mullerian anomalies. Obstet Gynecol 1987;69:412-5.
 12. Rolan AC, Choquette AJ, Semmens JP. Rudimentary uterine horn: obstetric and gynecologic implications. Obstet Gynecol 1966;27:806-13.
 13. Fedele L, Bianchi S, Tozzi L, Marchini M, Busacca M. Fertility in women with unicornuate uterus. Br J Obstet Gynaecol 1995;102:1007-9.
 14. Canis M, Wattiez A, Pouly JL, Mage G, Manhes H, Bruhat MA. Laparoscopic management of unicornuate uterus with rudimentary horn and unilateral extensive endometriosis: case report. Hum Reprod 1990;5:819-20.
 15. Kim JE, Park HJ, Lee SA, Liu SN, Kang AR, Lee EH. Laparoscopic management of uterine anomaly associated with agenesis of unilateral kidney and pelvic endometriosis: two case reports. Korean J Obstet Gynecol 2006;49:950-5.

흔적자궁각혈종과 심한 자궁내막증을 동반한 단각자궁기형의 복강경수술 1예

한림대학교 의과대학 산부인과학교실

성지은, 박찬은, 경민선, 최수란, 조 용, 노익선

단각자궁기형은 매우 드문 생식기계 기형의 일종이다. 비교적 흔한 흔적자궁각을 동반한 단각자궁기형은 초경 이후에 점차 심해지는 골반통, 자궁혈종, 난관혈종, 자궁내막증, 그리고 드물게는 흔적자궁임신 등의 합병증이 초래될 수 있다. 그러므로 진단이 되면 조기에 수술적 치료가 필요하다. 최근에는 복강경에 의한 최소침습수술 방법이 시도되고 있다. 본 저자들은 13세 소녀가 심한 하복부 동통으로 본원에 내원하여 단각자궁과 흔적자궁각내 혈종, 좌측 신장무형성증, 난관혈종, 그리고 자궁내막증이 진단되어 복강경을 통하여 유착박리술, 흔적자궁혈종, 난관혈종, 그리고 자궁내막증을 제거한 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어: 단각자궁, 흔적자궁각, 자궁내막증, 복강경