

CALCINOSIS CIRCUMSCRIPTA OF THE BOTH SALPINX: A CASE REPORT

Young Ah Kim, MD¹, Han Seong Kim, MD², Doo Young Chang, MD¹, Kyung Chul Jun, MD¹,
Myung Kwon Jeon, MD¹, Eung Soo Lee, MD¹

Departments of ¹Obstetrics and Gynecology, ²Pathology, Ilsan Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Goyang, Korea

Calcinosis circumscripta is defined by calcification in soft tissues. Clinically, calcinosis circumscripta is described as firm, white dermal papules, plaques, or subcutaneous nodules found in various sites. They commonly ulcerate, extruding a chalky white material that is frequently identified as hydroxyapatite. Calcinosis circumscripta most commonly involves the hand and wrist of middle-aged woman. The etiology and pathogenesis of calcinosis circumscripta are unknown. We experienced a case of calcinosis circumscripta of salpinx which was suspected ovarian tumor. Calcinosis circumscripta is extremely rare in gynecologic area. Here we report the case with review of literature.

Keywords: Calcinosis circumscripta, Salpinx

국한석회증(calcinosis circumscripta)은 피부, 피하, 근육, 인대와 같은 연조직(soft tissues)에 석회화(calcification)를 보이는 질환을 가리킨다[1]. 주로 결체조직질환을 가진 환자들에게 나타나며 손가락 끝, 손목, 발 등에 병변을 보인다[2]. 저자들은 난소 종양 의증 하에 복강경 수술을 시행한 환자에서 양측 난관에 국한석회증을 국내외적으로 처음 경험하였기에 보고하는 바이다.

증례

환자: 김 O O, 여자, 40세

주소: 난소 종양발견

산과력: 1-0-0-1

가족력: 특이 소견 없었다.

사회력: 특이 소견 없었다.

과거력: 1992년 폐결핵 진단 후 6개월간 약물 복용 후 완치판정 받았다. 1997년 결혼 후 임신이 되지 않아 불임전문병원에서 2001년 진단적 복강경 수술에서 골반 유착이 심해 자연임신이 불가능하다고 판단 받았다. 이후 난자채취와 배아이식을 시도하여 4번째에 임신이 되었고 2002년 개인 병원에서 제왕절개로 분만하였다.

월경력: 초경은 13세에 있었고 월경은 28일 주기로 규칙적이며 약 7일간 하였다. 월경양은 보통으로 월경통은 없었다.

현병력: 내원 2달 전 질 출혈이 있어 개인 의원 방문하여 난소 종양을 발견하였고 추가 검사 및 치료를 위해 내원하였다.

이학적 소견: 내원 당시 전신 상태는 양호하였고 의식은 명료하였으며 활력 징후는 정상이었다. 골반 내진에서 자궁과 양측 부속기가 전체적으로 딱딱하게 촉진되었고 자궁경부, 질 및 요도부위를 포함한 전정 부위에 특이소견은 없었다.

초음파 소견: 전체적으로 7.6×4.4×3.8 cm 크기로 저음영(low echogenicity)을 보이는 2개의 낭종으로 나뉘어 있었으며, 각 낭종의 음영은 약간의 차이를 보였고, 도플러 검사에서 혈류가 관찰되지 않았다(Fig. 1).

검사 소견: 일반혈액 검사, 요 검사, 면역혈청검사, 심전도는 모두 정상 범위였다. 흉부 X-선 검사에선 치료된 결핵의 흔적이 관찰되었다.

수술 소견: 좌측 난소 종양 진단 하에 복강경을 시행하였다. 자궁과 양측 난소와 난관은 전체적으로 유착되어 구분하기가 어려웠다(Fig. 2). 초

Received: 2010.11.22. Revised: 2011. 1.17. Accepted: 2011. 2. 8.

Corresponding author: Young Ah Kim, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Ilsan Paik Hospital,

Inje University College of Medicine, 2240 Daehwa-dong,

Ilsanseo-gu, Goyang 411-706, Korea

Tel: +82-31-910-7195 Fax: +82-31-910-7567

E-mail: camanbal@paik.ac.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

음파에서 관찰하지 못한 약 4×3 cm 크기의 종괴가 자궁후면에서 관찰되었고 이 종괴는 우측 난관과 연결되었으며 매우 단단하였다. 우측난

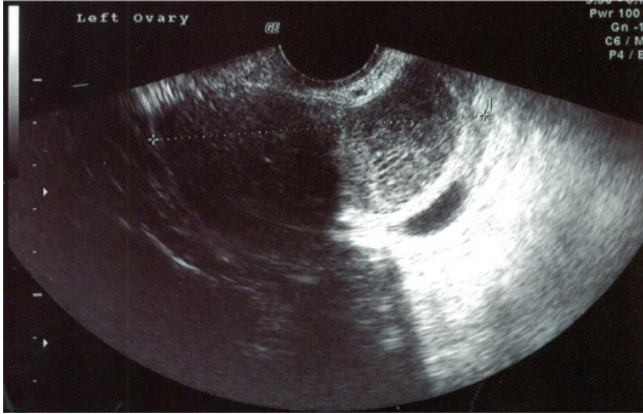


Fig. 1. Ultrasound showing the low echogenic mass (7.6×4.4×3.8 cm) with 2 chamber cysts of left ovary.

관과 유착된 난소 일부를 제거하였다. 맹낭(cul-de-sac)을 노출시키면서 좌측 난소종양으로 의심되는 종양이 나타났다. 좌측 난소종양을 제거할 때 종양 내 내용물은 분필 가루 같은 물질로 꽉 차있었으며 종괴는 난관과 붙어있어 난관도 같이 제거하였다.

병리 소견: 육안적으로 양측 난소와 난관은 유착이 심하여 잘 구분되지 않았다. 양측 난관에 단단한 다양한 크기의 흰색 결절들이 관찰되었으며 이 결절에서 분필가루 같은 물질이 배출되었다. 단단한 결절들은 탈회(decalcification)하여 포매(embedding)하였다. 현미경에서 단단한 결절들은 경계가 좋은 석회화 소견을 보였으며 모두 난관 근층 내에 위치하고 있었다(Fig. 3). 난소는 별다른 이상 소견을 보이지 않았으며 결핵을 의심할 만한 육아종(granuloma)은 보이지 않았다.

수술 후 경과: 수술 후 경과는 양호하였다. 수술 당일부터 식이 진행을 하였고, 별다른 합병증이 관찰되지 않았다. 수술 후 약 2일째에 특별한 문제없이 퇴원하였다. 외래 추적관찰에서 수술 조직 결과가 국한 석회증임을 확인하고 다른 결체조직 이상과 종양성 석회증(tumoral calcinosis)을 감별하기 위해 부갑상선 호르몬과 칼슘을 검사하였으나

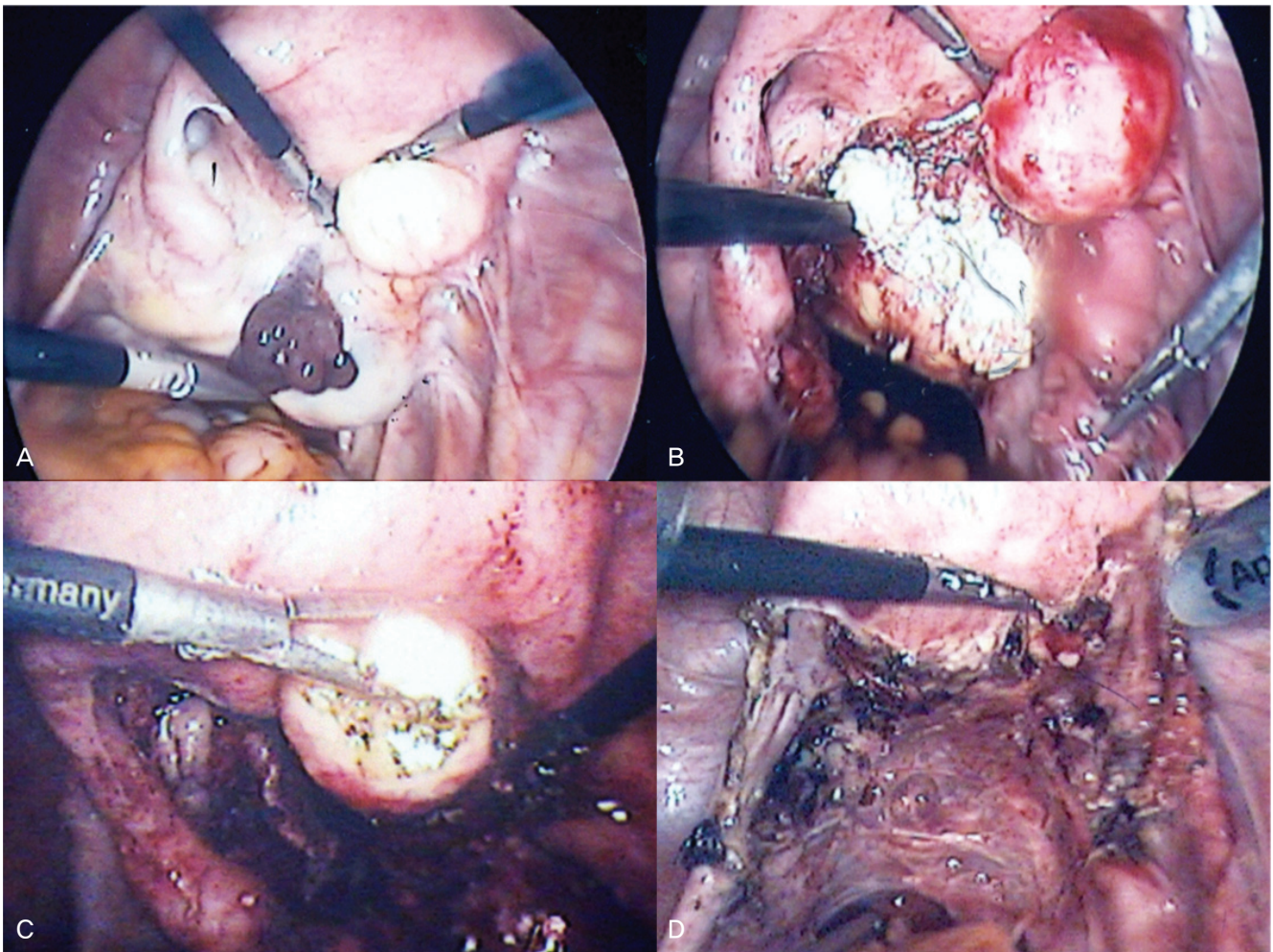


Fig. 2. A laparoscopic view of cul-de-sac (A). Chalky white material of left salpinx (B) and nodular mass of right salpinx (C) were noted. Postoperative view of cul-de-sac (D).

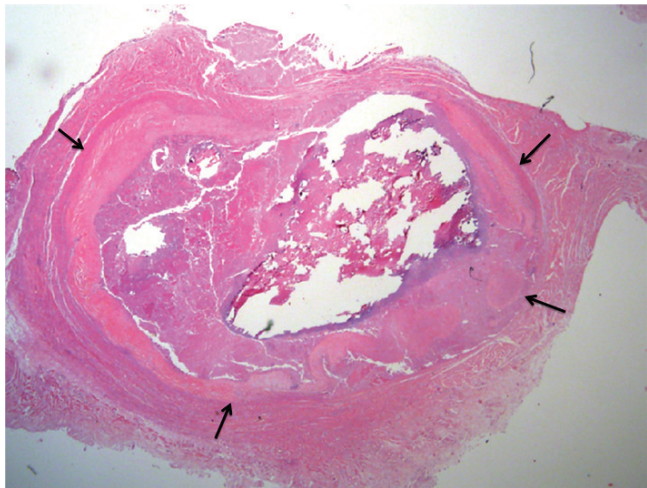


Fig. 3. Histologic finding. Well-circumscribed calcified nodules (arrows) within the muscular layer of the salpinx were noted (H&E, $\times 10$).

부갑상선 호르몬은 25.86 pg/mL (정상: 15–65 pg/mL)와 총 칼슘은 9.4 mg/dL (정상: 8.8–10.6 mg/dL)로 모두 정상으로 확인하였다.

고 찰

국한석회증은 연조직에 칼슘염(calcium salts)이 침착되어 이소적으로 무기질 침착을 보이는 흔하지 않은 질환이다. 임상적으로 진피 구진(dermal papules), 판(plaques) 혹은 피하조직 결절(nodules)로 기술되어 다양하게 분포한다. 궤양으로 나타나며 흰분필가루(chalky white material)가 밀려나오는데 이러한 칼슘염은 뼈와 치아 기질 중에 존재하여 그 구조를 견고하게 하는 수산화인회석(hydroxyapatite) 혹은 무정형 인산칼슘(amorphous calcium phosphate)으로 되어있다. 통풍(gout)과 어느 정도 유사성을 보여 부적절하게 chalk gout로도 불려 왔으나 통풍과는 연관이 없다. 중년여성이 대부분으로 손과 손목에서 가장 흔하게 나타나며 신생아와 어린이에서 보고된 바 있다[3,4]. 이 질환이 생명을 위협하지는 않지만, 근육운동을 방해하는 불편한 질환이다. 주로 손가락 관절주위 조직(periarticular tissues)에 잘 나타나며 큰 관절에서는 드물다. 칼슘 침전을 외과적으로 제거하기도 한다[5]. 국한 석회증은 인간에서 뿐 아니라 원숭이, 개, 고양이, 말, 소, 버펄로, 토끼, captive sitatunga 등에서도 보고되었다[6].

보고된 국한석회증 증례들은 통증이 있는 엄지손가락 부종과 압통이 있는 중족지골 관절(metatarsophalangeal joint)주위 종괴를 호소하는 중년여성[7], 양쪽 엄지손가락 연조직에 부종소견을 보이는 50세 여성[8], 둘째 발가락에 발적(redness)을 호소하는 9개월 된 여아[9] 등으로 정형외과와 피부과에서 주로 보고되었다. 산부인과에서 국한석회증은 거의 알려지지 않았으며 국내의 문헌을 조사해본 결과 부인과에서는 처음 보고되는 것이다.

국한석회증은 임상 및 병리조직학적 소견과 혈중 칼슘 수치와 인산

수치에 따라 전이성(metastatic), 이상성(dystrophy), 특발성(idiopathic)으로 구분된다. 전이성 국한석회증은 칼슘과 인산의 비정상적인 대사와 관련되어 혈중 수치가 증가되어 있다[10–12]. 전이성 국한석회증은 전반적인 무기질 침착을 보여 내장 장기(visceral organ)에서 나타난다. 만성 신부전증, 사르코이드증(sarcoidosis), 부갑상선 종양 등이 관련 있다. 이상성 국한석회증은 가장 흔한 형태로 염증과정에 의해 이차적으로 생성되며 국소적 혹은 전신적으로 나타난다. 주로 외상, 피부경화증(scleroderma), 피부근육염(dermatomyositis), 전신홍반성루푸스, Werner's 증후군, 혈관 경색(vascular infarct), Ehlers-Danlos 증후군, 탄력섬유거짓황색증(pseudoxanthoma elasticum), 감염, 이물질 반응에 의한 외상 등이 포함된다[13]. 특발성 국한석회증은 국소적인 연조직 손상이나 전신적인 대사 결함이 없이 나타나는 것으로 이상성 석회증과 같이 혈청 칼슘과 인산 수치가 정상이다. 본 증례는 혈중 칼슘 수치와 부갑상선 호르몬 수치가 정상으로 특발성 국한석회증에 해당된다.

석회화 과정의 기전은 잘 밝혀지지 않았으나, Walsh와 Fairley [14]는 전이성 및 이상성 피부 석회증에서 미토콘드리아가 초기 병소로 작용하며, 이상성 석회증의 경우 세포막 손상에 의해 다량의 칼슘이 세포 내로 유입되고 과사된 세포는 주위 환경을 산성으로 변화시켜 억제 인자를 억제함으로써 석회침착이 일어난다고 하였다. Bundin과 Feldman [15]은 손상된 세포에서 알칼리성 인산분해효소가 유리되고, 과사된 조직의 pH가 상승하여 칼슘염 침착을 유도한다는 가설을 제시하였다. Caniggia 등[16]은 국한석회증에서 골 파괴의 가능한 기전으로 prostaglandin E2의 기능을 설명하기도 하였다.

국한석회증은 연조직에 석회질로 나타나는 질환인 만성 신부전의 석회증, 전신 석회증, 종양성 석회증(tumoral calcinosis), 석회힘줄염(calcific tendonitis), 활액막 뼈연골종증(synovial osteochondromatosis), 활액막종(synovial sarcoma), 골육종(osteosarcoma), 골화근염(myositis ossificans), 결절 통풍(tophaceous gout), 석회 근육괴사(calcific myonecrosis) 등과 감별 진단하여야 한다[13]. 전신 석회증은 판처럼(sheetlike) 분포를 보이며 주로 근육과 근막 면(planes)을 침범한다. 국한석회증은 윤활주머니(bursal region) 보다는 피하조직에 전형적으로 위치한다.

진단을 위한 영상검사는 컴퓨터 단층촬영뿐 아니라 초음파와 자기 공명영상도 국한석회증의 정확한 위치와 추적관찰에 잘 이용할 수 있다.

국한석회증은 드문 질환이며 난관에서 유래한 국한 석회증은 국내외적으로 처음 보고되는 것이다. 이에 저자는 40세 여성의 자궁부속기 종양에서 국소 석회증을 경험하였기에 보고하는 바이다.

References

1. Stewart VL, Herling P, Dalinka MK. Calcification in soft tissues. JAMA 1983;250:78-81.
2. Dalinka MK, Melchior EL. Soft tissue calcifications in systemic disease. Bull N Y Acad Med 1980;56:539-63.

3. Rothstein JL, Welt S. Calcinosis universalis and calcinosis circumscripta in infancy and in childhood: 3 cases of calcinosis universalis, with review of literature. *Am J Dis Child* 1936;52:368-422.
4. Swanson WW, Forster WG, Iob V. Calcinosis circumscripta. *Am J Dis Child* 1933;45:590-3.
5. Cousins MA, Jones DB, Whyte MP, Monafo WW. Surgical management of calcinosis cutis universalis in systemic lupus erythematosus. *Arthritis Rheum* 1997;40:570-2.
6. Tafti AK, Hanna P, Bourque AC. Calcinosis circumscripta in the dog: a retrospective pathological study. *J Vet Med A Physiol Pathol Clin Med* 2005;52:13-7.
7. Wong AC, Asai M, Masuda K, Wada E, Matsunaga T, Akahoshi Y. Calcinosis circumscripta. A case report. *J Bone Joint Surg Am* 1986;68:297-9.
8. Gaetani SA, Casiglia M, Zorini P. Calcinosis circumscripta: report of a case. *Eur J Radiol* 1990;11:222-3.
9. Mendoza LE, Lavery LA, Adam RC. Calcinosis cutis circumscripta. A literature review and case report. *J Am Podiatr Med Assoc* 1990;80:97-9.
10. Black AS, Kanat IO. A review of soft tissue calcifications. *J Foot Surg* 1985;24:243-50.
11. Raimer SS, Archer ME, Jorizzo JL. Metastatic calcinosis cutis. *Cutis* 1983;32:463-5.
12. Smack D, Norton SA, Fitzpatrick JE. Proposal for a pathogenesis-based classification of tumoral calcinosis. *Int J Dermatol* 1996;35:265-71.
13. Olsen KM, Chew FS. Tumoral calcinosis: pearls, polemics, and alternative possibilities. *Radiographics* 2006;26:871-85.
14. Walsh JS, Fairley JA. Calcifying disorders of the skin. *J Am Acad Dermatol* 1995;33:693-706.
15. Bundin JA, Feldman J. Soft tissue calcifications in systemic lupus erythematosus. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1975;124:358-64.
16. Caniggia A, Gennari C, Vattimo A, Runci F, Bombardieri S. Prostaglandin PGE2: a possible mechanism for bone destruction in calcinosis circumscripta. *Calcif Tissue Res* 1978;25:53-7.

양측 난관에 보인 국한석회증 1예

인제대학교 의과대학 일산백병원 ¹산부인과, ²병리과
 김영아¹, 김한성², 장두영¹, 전경철¹, 전명권¹, 이응수¹

국한석회증은 피부, 피하, 근육, 인대와 같은 연조직(soft tissues)에 석회화(calcification)를 보이는 질환을 가리킨다. 임상적으로 진피 구진(dermal papules), 판(plaques) 혹은 피하조직 결절(nodules)로 기술되어 다양하게 분포한다. 대부분 궤양을 보이며 흰분필가루(chalky white material)가 밀려나오는데, 이는 뼈와 치아의 기질 중에 존재하여 그 구조를 견고하게 하는 수산화인회석(hydroxyapatite)이다. 중년여성에게 대부분으로 손과 손목에서 가장 흔하게 나타나며 아직까지 원인과 기전은 밝혀지지 않았다. 저자들은 난소 종양 의증 하에 복강경을 시행한 환자에서 양측 난관에 국한 석회증을 경험하였다. 국소 석회증은 매우 드문 질환이며 부인과 질환으로는 국내외 문헌을 고찰해본 결과 처음 보고되는 것이다.

중심단어: 국한 석회증, 난관