

CASE REPORT

상피하 종양 형태로 나타난 맹장의 자궁내막증 1예

황민식, 김영돈, 신사영, 전제혁, 홍종삼, 엄대운¹, 천갑진

울산대학교 의과대학 강릉아산병원 내과학교실, 병리학교실¹

A Case of Cecal Endometriosis Presenting as Subepithelial Tumor

Min Sik Hwang, Young Don Kim, Sa Young Shin, Jae Hyuck Jun, Jong Sam Hong, Dae Woon Eom¹, and Gab Jin Cheon

Departments of Internal Medicine and Pathology¹, Gangneung Asan Hospital, University of Ulsan College of Medicine, Gangneung, Korea

Endometriosis is a benign gynecologic disease, characterized by the presence and growth of functional endometrial-like tissue outside uterus. This ectopic endometrial tissue is most commonly found in the peritoneum, ovaries and uterosacral ligaments, but extremely rarely there is involvement of the appendix or cecum. Here we report a case of cecal endometriosis presenting as a subepithelial tumor diagnosed by surgical excision. (Korean J Gastroenterol 2016;68:214-217)

Key Words: Endometriosis; Colonic neoplasms

서 론

자궁내막증은 에스트로겐의 자극에 의한 염증성 질환으로 가임기 여성의 5-10%에서 발생하며,¹ 자궁내막 조직이 자궁강 외부에 존재하는 것을 특징으로 한다.²⁻⁵ 호발 부위는 복막과 난소이며,^{3,6} 위장관에 존재하는 경우는 약 12% 정도로 알려져 있고,² 맹장이나 충수 돌기에 발생하는 경우는 매우 드물다.^{2,6-9} 저자들은 우하복부 통증을 호소하는 여성에서 복부 전신화단층촬영 및 대장 내시경검사에서 맹장의 상피하 종양 소견을 보여, 악성 종양의 가능성을 완전히 배제할 수 없어 외과적 절제 수술 후 자궁내막증으로 최종 진단한 증례를 경험하여 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

46세 여자가 내원 1일 전부터 10분 정도 지속되는 간헐적

인 우하복부 통증을 주소로 개인 의원을 방문하였다. 복부 초음파검사에서 우하복부 대장 부위의 부종 소견으로 급성 충수돌기염이 의심되어 본원 응급실로 전원되었다. 환자는 5년 전 척추 추간판 탈출증 수술력 외에 특이 병력은 없었다. 3회의 질식분만 산과력이 있었으며, 자연 유산이나 자궁 외 임신의 병력은 없었다. 평소에 생리량이 많고 생리통이 심하다고 하였고, 3일 전에 마지막 생리가 있었다고 하였다. 응급실 내원 당시 환자는 급성 병색을 보였으나 의식은 명료하였고, 오심, 발한 증상을 동반하였으며, 신체검진에서 우하복부 압통 소견이 있으나 반발 압통은 없었으며, 복부의 뚜렷한 종괴는 만져지지 않았다. 혈압 142/91 mmHg, 맥박 66회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.8°C였으며, 심음은 정상이었고 심장음도 들리지 않았고 호흡음은 깨끗하였다. 검사실 소견에서 백혈구 7,700/mm³ (호중구 59.3%), 혈색소 14.0 g/dL, 적혈구용적 40%, 혈소판 285,000/mm³였고, 소변 검사에서 잠혈수치 3+, 혈청 포타슘 3.8 mEq/L, 총단백 7.3 g/dL, 알부민 4.3

Received May 30, 2016. Revised July 18, 2016. Accepted July 19, 2016.

© This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.
Copyright © 2016. Korean Society of Gastroenterology.

교신저자: 천갑진, 25440, 강릉시 사천면 방동길 38, 강릉아산병원 소화기내과

Correspondence to: Gab Jin Cheon, Department of Internal Medicine, Gangneung Asan Hospital, 38 Bangdong-gil, Sacheon-myeon, Gangneung 25440, Korea.
Tel: +82-33-610-3127, Fax: +82-33-641-8130, E-mail: gi@gnah.co.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

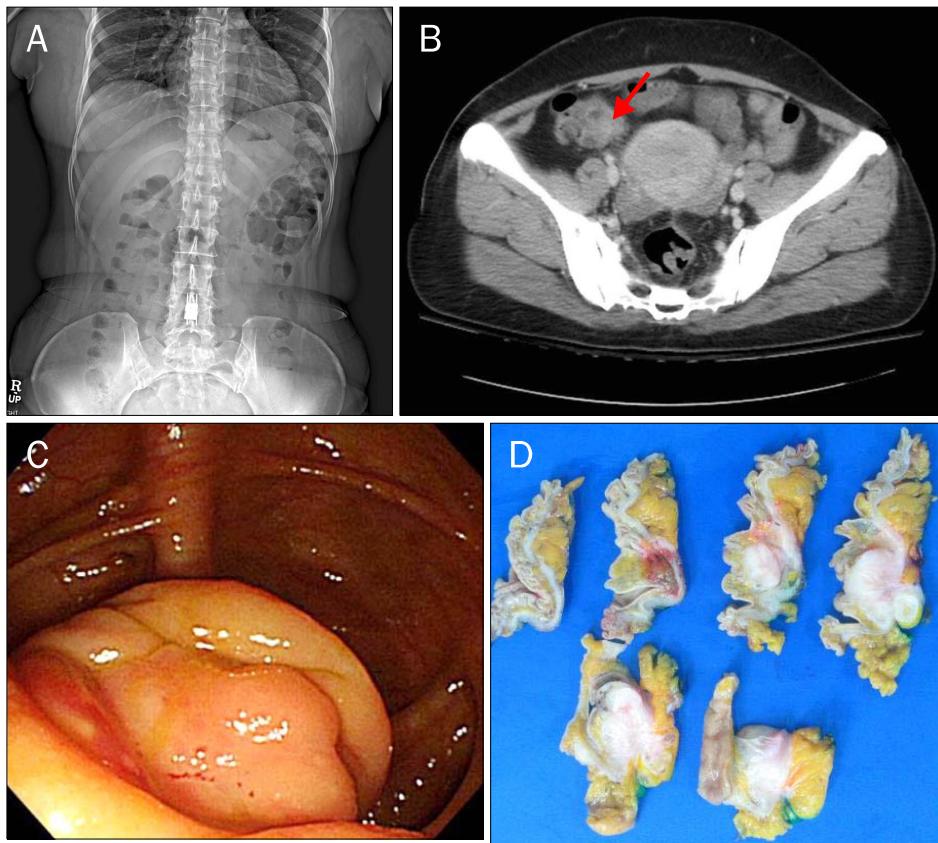


Fig. 1. (A) Upright view of the abdomen shows nonspecific bowel gas. (B) Abdomen pelvic CT (arrow) shows eccentric wall thickening and minimal infiltration on mesentery. (C) Endoscopic finding shows a 30 mm protruding lesion with mucosa on cecum. (D) Gross finding. A mass-like lesion is noted in the cecal wall, from submucosa to subserosa. The cut surfaces of the lesion are whitish gray and solid. No hemorrhage or necrosis is present.

g/dL, 총빌리루빈 0.5 mg/dL, AST/ALT 18/18 IU/L, BUN 9.4 mg/dL, Cr 0.7 mg/dL, CRP 0.08 mg/dL, CEA 2.0 ng/mL였다. 단순촬영에서 소장의 가스 양상을 보였고(Fig. 1 A), 흉부 사진에서는 특이 소견 관찰되지 않았다. 환자는 간헐적인 우하복부 통증을 호소하였기 때문에 급성 충수돌기염을 배제하기 위해 복부 전산화단층촬영을 시행하였다. 복부 전산화단층촬영에서 비대칭적인 대장벽의 비후 소견이 보이고, 염증의 주변 조직으로의 침윤이 매우 제한적이어서 맹장의 종양 또는 염증성 질환을 의심하였다(Fig. 1B). 또한 자궁 내에는 약 6 cm 크기의 석회화를 동반한 다발성 자궁 근종이 관찰되었다. 환자는 증상이 호전되어 외래에서 대장 내시경검사를 시행받기로 하고 귀가하였다.

대장 내시경검사에서 맹장의 충수돌기 주위에 표면의 일부 발적을 동반하고 정상 점막으로 덮인 3 cm 정도 크기의 상피하 종양 양상의 종괴가 관찰되었고, 겹자로 촉지 시 충실하고 단단한 내용물을 포함하고 있는 것으로 생각되었다(Fig. 1C). 병변에 대한 내시경 조직 검사 결과 비특이적인 만성 염증 소견만이 관찰되었으나, 악성화의 가능성이 있는 종양일 가능성을 배제할 수 없어 감별을 위해 수술을 시행하기로 결정하였다.

일반 외과에서 회결장판 주위 맹장 종괴에 대해 단일공 복강경으로 우측 결장 반절제술을 시행하였다. 수술 시 충수돌

기는 육안적으로 확인되지 않고 종괴와 한 뎅어리로 붙어 있었으며, 맹장 표면의 점액질 양상의 종괴를 절제하였는데, 말단 회장 부위에도 1-2 mm 크기의 점액 물질과 협착 소견을 동반하고 있어 같이 병변에 포함하여 절제하였다.

절제 조직은 육안 병리 검사에서 점막하층부터 장막에 걸친 3×2 cm 크기의 회백색 종괴로, 출혈이나 고사 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 1D). 병리 조직학적 소견에서 회장 말단, 맹장, 충수돌기의 점막하층과 근층에 자궁내막의 선과 기질이 관찰되어 자궁내막증으로 진단할 수 있었고(Fig. 2A, B), 41 개의 대장 주위 림프절 침범 소견은 없었다. 이후 침윤성 선암 가능성성을 배제하기 위해 면역 염색을 시행하였을 때, 자궁내막 조직의 선과 기질에서 각각 ER(+), CD10(+), CDX2(-)로 자궁내막증 진단에 합당한 소견을 보였다(Fig. 2C, D).

환자는 수술 후 8일째 특별한 합병증 없이 퇴원하였고, 추후 외래에서 시행한 CA-125 수치는 51.9 U/mL로 정상치(0-35 U/mL)에 비해 상승되어 있었다. 산부인과 외래에서 성선 자극 호르몬 유리 호르몬 촉진제(GnRH agonist)를 투여 중이며, 동반하고 있는 6 cm 크기의 자궁근종에 대해서는 향후 증상 여부에 따라 자궁 절제술을 고려 중이다.

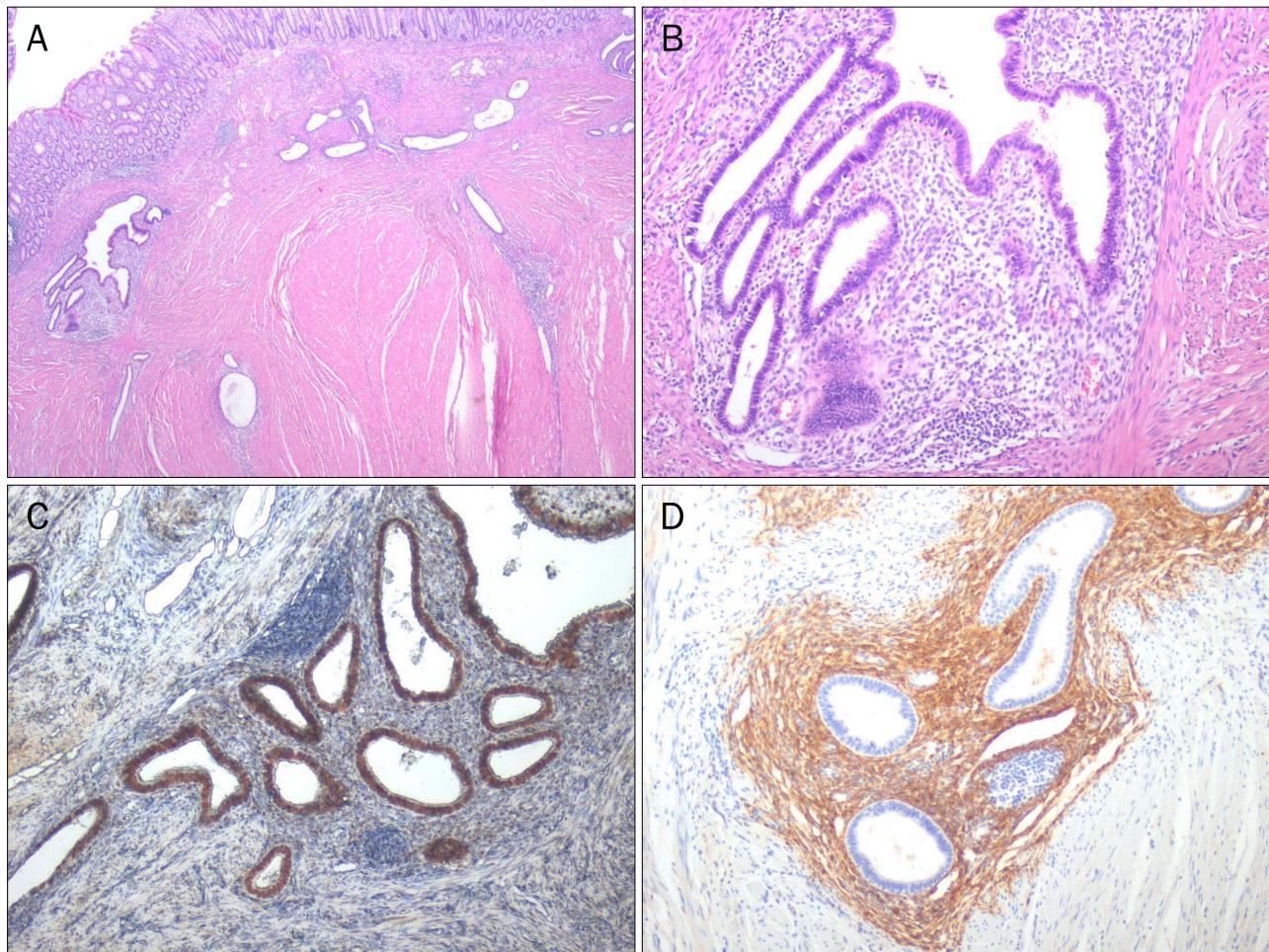


Fig. 2. (A, B) Some endometrial glands and stromal cells are noted in the submucosa and proper muscle of the colon (H&E; A, $\times 20$ and B, $\times 100$). (C, D) The endometrial glandular are positive for ER, and the stromal cells for CD10 ($\times 100$, immunohistochemistry).

고 찰

자궁내막증은 자궁내막 샘과 기질을 포함한 자궁내막 조직이 자궁강 이외의 부위에 위치하는 것으로, 병변에서 월경 주기에 따라 주기적 출혈이 일어나 염증을 일으키고 반흔과 유착을 남겨 다양한 임상 증상을 나타내는 질환이다. 자궁내막증의 정확한 병인은 아직 명확히 밝혀져 있지 않으나, 생리혈이 역류하여 자궁내막 조직이 난관을 통해 복강 내로 퍼진다는 월경혈 역류 및 착상 가설이 가장 보편적으로 받아들여지고 있고, 그 외에 체강 상피 화생설과 유도설, 세포성 면역변성, 전이 등이 제시되고 있으나,¹⁰ 단일 기전보다는 복합 기전에 의해 발생할 것으로 생각된다.

자궁내막증이 가장 많이 호발하는 부위는 복막과 난소이나^{3,6} 위장관에 존재하는 경우도 약 12% 정도로 알려져 있는데,² 그 중에서 직장과 S상 결장이 72.4%로 대부분을 차지하며, 소장 7%, 맹장 3.5%, 충수돌기에서는 3.0% 빈도로 드물게 발견된다.¹¹ 또한 자궁내막증이 위장관에서 발생하는 경우 고

유근총과 점막총을 침범하는 경우는 드물며 대개 장막하 총에서 발생하고 점막총은 대부분 침범하지 않는 것으로 알려져 있다.^{12,13}

자궁내막증은 주로 장막에 위치하므로 대부분 무증상이지만, 증상이 있는 경우는 만성 복통이 흔하고, 때로 급성 복통을 동반하는 경우도 있으며, 발생 부위와 침윤 정도에 따라 다양한 임상 증상을 나타낸다. 이번 증례에서와 같이 자궁내막증이 맹장이나 충수돌기에 발생했을 경우에는 급성 충수돌기염으로 오인될 수 있으므로 젊은 여성의 우하복부 통증을 호소하는 경우 자궁내막증을 감별 진단에 포함시켜야 하며, 종양의 형태로 나타나는 경우, 특히 회장에 발생했을 경우 장폐색을 유발하기도 한다.

자궁내막증은 조직 검사에서 자궁내막 조직의 선과 기질이 관찰되어야 진단이 가능한데,^{14,15} 점막총까지 침범하는 경우는 매우 드물기 때문에¹² 대장 내시경검사에서 정상으로 보일 때가 많아 수술 없이 정확한 진단을 하기는 어렵다. 이번 증례 역시 자궁내막증이 점막하총과 근총을 침범하여 상피하 종양

형태로 발현한 경우로, 수술 후 병리 조직 검사를 통해 진단할 수 있었다.

자궁내막증의 치료는 환자의 임상 증상, 연령과 향후 출산 계획, 병기 등을 고려하여 결정해야 한다. 최근에는 복강경 수술 기법이 발달하고 성선자극 호르몬 유리호르몬 촉진제가 사용되면서 치료 성적이 향상되고 있다.¹⁶ 난소암의 종양 표지자인 CA-125는 자궁내막증이 있을 때 혈청 농도가 증가한다고 알려져 있으나, 특이도 및 민감도가 낮아 진단에는 적절하지 않고 치료 후 추적 검사 시 참고할 수 있다.¹⁷

이번 증례와 같이 자궁내막증과 자궁근종이 동반된 예는 약 8.5%로 보고되고 있는데,¹⁸ 증상 악화 시 추가적으로 자궁 절제술이 필요하다.

자궁내막증은 비교적 흔한 부인과 질환이지만 위장관 중에서 맹장, 충수돌기에 발생하는 경우는 매우 드물다. 더구나 내시경적 생검에서는 염증 소견만 보이고 자궁내막 조직은 관찰되지 않는 경우가 많아, 내과 의사들이 자궁내막증을 의심하지 않으면 수술 및 조직 검사 후까지 진단이 지연되는 경우가 많다. 따라서 젊은 여성의 대장 내시경검사에서 위장관 내 원인 불명의 종괴가 있을 때, 악성 종양 외에도 자궁내막증의 가능성을 고려해야 할 것으로 생각된다.

REFERENCES

- Bulun SE. Endometriosis. *N Engl J Med* 2009;360:268-279.
- Hasegawa T, Yoshida K, Matsui K. Endometriosis of the appendix resulting in perforated appendicitis. *Case Rep Gastroenterol* 2007;1:27-31.
- Ijaz S, Lidder S, Mohamid W, Carter M, Thompson H. Intussusception of the appendix secondary to endometriosis: a case report. *J Med Case Rep* 2008;2:12.
- Khoo JJ, Ismail MS, Tiu CC. Endometriosis of the appendix presenting as acute appendicitis. *Singapore Med J* 2004;45:435-436.
- Podgaec S, Gonçalves MO, Klajner S, Abrão MS. Epigastric pain relating to menses can be a symptom of bowel endometriosis. *Sao Paulo Med J* 2008;126:242-244.
- Tumay V, Ozturk E, Ozturk H, Yilmazlar T. Appendiceal endometriosis mimicking acute appendicitis. *Acta Chir Belg* 2006;106:712-713.
- Al Oulaqi NS, Hefny AF, Joshi S, Salim K, Abu-Zidan FM. Endometriosis of the appendix. *Afr Health Sci* 2008;8:196-198.
- Driman DK, Melega DE, Vilos GA, Plewes EA. Mucocele of the appendix secondary to endometriosis. Report of two cases, one with localized pseudomyxoma peritonei. *Am J Clin Pathol* 2000;113:860-864.
- Gustofson RL, Kim N, Liu S, Stratton P. Endometriosis and the appendix: a case series and comprehensive review of the literature. *Fertil Steril* 2006;86:298-303.
- Giudice LC, Kao LC. Endometriosis. *Lancet* 2004;364:1789-1799.
- Macafee CH, Greer HL. Intestinal endometriosis. A report of 29 cases and a survey of the literature. *J Obstet Gynaecol Br Emp* 1960;67:539-555.
- Yantiss RK, Clement PB, Young RH. Endometriosis of the intestinal tract: a study of 44 cases of a disease that may cause diverse challenges in clinical and pathologic evaluation. *Am J Surg Pathol* 2001;25:445-454.
- Campagnacci R, Perretta S, Guerrieri M, et al. Laparoscopic colorectal resection for endometriosis. *Surg Endosc* 2005;19:662-664.
- Bozdech JM. Endoscopic diagnosis of colonic endometriosis. *Gastrointest Endosc* 1992;38:568-570.
- Valle RF, Sciarra JJ. Endometriosis: treatment strategies. *Ann NY Acad Sci* 2003;997:229-239.
- Emmanuel KR, Davis C. Outcomes and treatment options in rectovaginal endometriosis. *Curr Opin Obstet Gynecol* 2005;17:399-402.
- Olive DL, Schwartz LB. Endometriosis. *N Engl J Med* 1993;328:1759-1769.
- Ajossa S, Mais V, Guerrero S, et al. The prevalence of endometriosis in premenopausal women undergoing gynecological surgery. *Clin Exp Obstet Gynecol* 1994;21:195-197.