

□ 중 례 □

폐실질의 자궁내막증식증 1예

대전울지병원 내과

백 상 현 · 이 경 주

= Abstract =

A Case of Parenchymal Pulmonary Endometriosis

Sang Hyun Baek, M.D. and Kyung Joo Lee, M.D.

Department of Internal Medicine, Eulji General Hospital, Daejeon, Korea

Parenchymal pulmonary endometriosis is the likely cause in patients with hemoptysis, dyspnea, or chest pain during menstruation.

Embolization of endometrial tissue from the uterus to the lungs via the pulmonary arteries has been proposed for the mechanism of the development of parenchymal pulmonary endometriosis. This is a report of a woman with catamenial hemoptysis which was responded successfully to danazol therapy; however, hemoptysis resumed after cessation of therapy. The patient was subsequently treated with danazol again because she refused surgical treatments.

서 론

폐의 자궁내막증식증은 매우 드문 질환으로 Foster 등¹⁾에 의해 두 종류로 분류되어 진바, 늑막 자궁내막증식증을 가진 환자들은 주로 우측 기흉 및 늑막삼출과 함께 흉통과 호흡곤란을 호소하는 반면 폐실질 자궁내막증식증을 가진 환자들은 월경시 호흡곤란, 흉통, 각혈등의 증상을 나타낸다. 그중 폐실질 자궁내막증식증은 매우 희귀한 질환으로 Medline으로 검색해 본 결과 1956년 Lattes등²⁾에 의해 처음 보고된 이후 전 세계적으로 22예가 보고 되었다.

저자들은 매월 월경시 발생한 각혈 및 호흡곤란을 주소로 내원한 27세 여자 환자에서 Danazol 투여 후 증상이 호전된 폐실질 자궁내막증식증 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 하 ○ 순, 27세, 여자.
주 소 : 월경과 함께 시작된 각혈.
과거력 : 특이사항 없음.
임신력 : 1-0-1-1.
월경력 : 초경-14세
주기-32일(규칙적)
기간-5일
양-보통

가족력 : 특이사항 없음.

현병력 : 내원 6개월전부터 반복되는 월경과 동반된 각혈을 주소로 내원하였다. 환자는 1988년 10월 첫 아이를 정상분만하였고, 1990년 1월 10일 두번째 임신 3개월에 임신중절술을 시행받았다. 그후 특별한 증상없이 지나던중 1990년 6월 4일 월경 제 3일째 갑자기 각혈, 호흡곤란, 우측 흉통이 발생하였으나 월경이 끝난후 증상의 자연적인 소실이 있었다. 그후 매일 월경시 상기 증

상의 반복이 있어 개인병원에서 간헐적인 치료를 받던중 1990년 12월 10일 월경과 동반된 각혈을 주소로 대전을 지병원 내과에 내원하였다. 내원시 각혈, 기침, 경도의 호흡곤란, 흉통을 호소하였다.

이학적 소견 : 혈압 110/80 mmHg, 체온 36.5°C, 맥박수 80/min, 호흡수 20/min였으며, 갑자기 아픈 표정이었고 영양 상태는 좋았다. 경부 임파절은 촉진되지 않았으며 비교적 호흡음은 깨끗하였고 심음은 정상이었다. 간 및 비장은 촉진되지 않았으며 하지의 함요부종은 없었고, 골반내진검사상 이상소견은 없었다.

검사 소견 : 말초혈액검사상 혈색소 12.4 g/dl, 혈구치 39%, 백혈구 8,900/mm³, 혈소판 280,000/mm³이었으며, 혈액화학검사, 소변검사, 대변검사, 심전도검사, 폐기능검사는 정상이었다. B형 간염 항원음성이었고, 항체양성이었다. 객담 결핵균 도말검사 및 세포진검사상 정상이었다. 단순흉부촬영은 정상이었었고(Fig. 1), 흉부 CT 촬영은 사정상 월경이 없을 때 시행하였는데 정상이었으며, 골반 초음파검사 및 CT 촬영상 자궁내막증식증을 의심할 만한 소견은 없었다. 내원 후 즉시 시행한 기관지경검사상 우하엽의 후폐저구역기관지에서 신선혈액의 유출과 기관지점막의 경미한 미란성 변화가 관찰되었다(Fig. 2). 기관지세척액 항산균 도말검사상 정상이었었고, 기관지세척액 세포진검사상 출혈과 혈철소 함유 대식세포 및 자궁내막 기질세포와 유사한 세포들이

관찰되었고(Fig. 4), 조직검사상은 비특이적 염증소견만이 관찰되었다. 내원후 두번째 월경 및 각혈시 시행한 기관지경검사상 우하엽후폐저 구기관지에 출혈 및 3~4개의 결절성 병변이 관찰되었으나(Fig. 3) 조직검사상 역시 비특이적 염증소견을 보였고 기관지세척액 세포진검사상 전과 동일한 소견을 보였다.

치료 및 경과 : 임상양상 및 기관지세척액 세포진검사

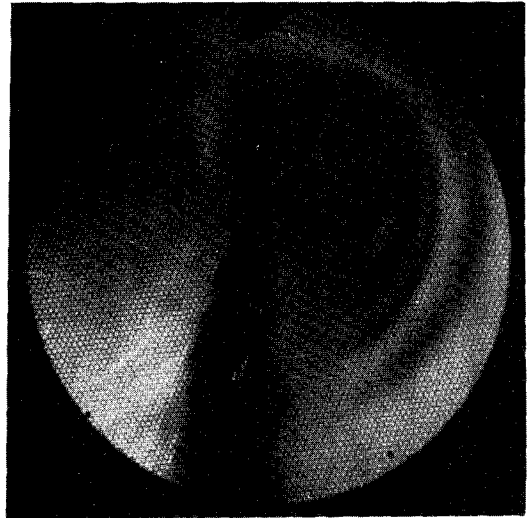


Fig. 2. The first bronchoscopic exam: fresh blood was issued from posterior basal segment of right lower lobe.

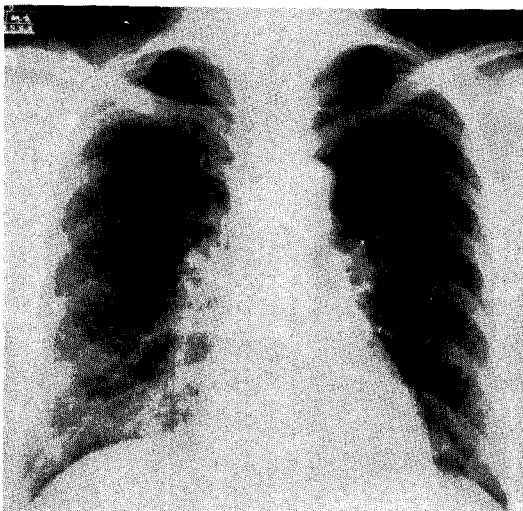


Fig. 1. The chest PA which was taken during the menstruation cycle.

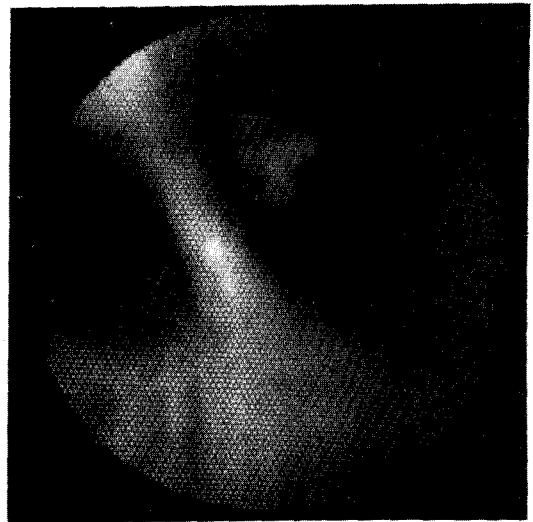


Fig. 3. The second bronchoscopic exam: small nodules were noted on the posterior basal segment of right lower lobe.

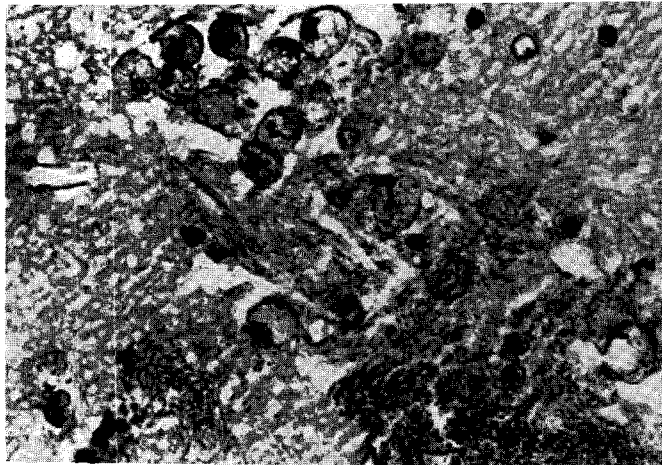


Fig. 4. The bronchial washing cytology showed many red blood cells and hemosiderin-laden macrophages.

결과로 폐실질 자궁내막증식증의 추정진단하에 내원 1개월후부터 Danazol 800 mg을 1일 2회 분복하였다. 투약후 다음 월경 예정일부터 월경 및 각혈이 없어졌으며 기타흉부 증상도 발생하지 않았다. Danazol 투여 3개월 후 우측 흉막삼출액이 발생하여 흉관삽입술을 시행하였는 바, 늑막액 화학적 검사상 삼출액소견을 보였으며 세균학적 검사상 특이소견은 없었으며, 적혈구수 7,200/mm³, 백혈구수 8,800/mm³이었고 그중 호중구 20%, 임파구 80%였다. 세포진검사 및 조직학적 검사상 급만성 염증의 소견만 있었고 늑막 자궁내막증식증의 소견은 없었다. 흉관 제거후 특별한 문제없이 지내던중 Danazol 투여 5개월째 환자가 임의로 투약을 중지한후 두번째 월경주기에 다시 각혈이 발생하였으며 당시 시행한 기관지경검사상 기왕에 보였던 결절성 병변은 없었으며 동일구역에서 출혈만이 관찰되었다. 현재 증상치료를 위해 다시 Danazol 투여중이다.

고 안

복강외의 자궁내막증식증은 충수돌기, 장, 담낭, 위, 비장, 신장등에서 발생할 수 있으며 매우 드물게는 흉곽내에도 발생할 수 있다³⁾. 흉곽내에 자궁내막 세포들이 존재할 때 폐의 자궁내막종이라하며 월경과 동반되어 기흉, 혈흉등이 동반되는 늑막 자궁내막증식증과 월경과 동반되어 각혈이 반복되거나 무증상의 폐결절이 발견되

는 폐실질의 자궁내막증식증으로 분류되어진다.

1956년 Lattes등²⁾에 의해서 폐의 자궁내막증식증이 처음 보고되고, Maurer등⁴⁾에 의해서 1958년 늑막 자궁내막증식증이 보고된 이후 드물게 증례보고가 있어온 바 국내에서는 배등⁵⁾에 의해서 1988년 처음 보고되었으며, 폐실질의 자궁내막증식증은 매우 희귀하여 전 세계적으로 약 22예만이 보고되었고, 국내에는 아직 그 보고가 없다.

폐의 자궁내막증식증의 발생에 대해서 몇가지의 기전이 제시되고 있는바, 1) 폐동맥을 통한 자궁으로부터 폐로의 자궁내막조직의 색전현상, 2) 나팔관을 통해 역류된 혹은 복막 자궁내막증식증 병소로부터 복강내로 유리된 자궁내막조직의 횡격막루를 통한 늑막으로의 이주, 3) 늑막 중피세포의 자궁내막세포로의 화생등이 있다⁶⁾.

늑막 자궁내막증식증에서 육안적 소견상 여러개의 청자색 결절들이 1mm에서 몇 cm 크기로 장축 혹은 벽측 흉막에서 관찰되며 간혹 낭포성 변화도 관찰된다^{7,8)}. 횡격막측 흉막에도 종종 병변이 보이며, 폐실질로의 직접적인 전파도 관찰될 수 있다. 폐의 자궁내막증식증은 현미경 소견상 철색소함유 대식세포와 함께 전형적인 자궁내막기질과 혼합된 등골거나 불규칙한 선상의 조직이 있을 때 확진될 수 있다. 간혹 늑막 자궁내막증식증에서 병변이 괴사후 치유되어 섬유화 소견만을 보이기도 한다⁹⁾. 그러나 조직학적인 확진은 환자의 약 30% 이하에서만 가능한 바⁹⁾, 질환의 진단을 위해서는 정확한 병력

청취 및 치료에 대한 반응여부 관찰이 무엇보다도 중요하다.

임상양상은 폐실질의 자궁내막증식증과 늑막 자궁내막증식증 사이에 약간의 차이가 있는 바¹⁾, 늑막 자궁내막증식증에서 대부분의 환자가 월경시 우측 기흉 및 흉막삼출과 동반된 흉통 및 호흡곤란을 호소하며 통계적 의의는 없지만 폐실질 자궁내막증식증에 비해 경산부에서 더 흔하다 한다. 약 93%에서 우측에 발생하며 47%에서 골반 자궁내막증식증의 기왕력이 있어 폐실질이 더 드물다하며 무증상인 경우도 있다 한다⁶⁾. 특히 횡격막 자궁내막증식증인 경우는 급성 복증을 의심할 수 있거나¹⁰⁾ 주기적인 견갑골 주위 동통을 호소하기도 한다¹¹⁾. 폐실질 자궁내막증식증은 늑막 자궁내막증식증에 비해 기왕의 골반 수술력이 많으나 통계적 의의는 없으며, 10%에서 골반 자궁내막증식증이 공존하며, 약 64%에서 우측에 발생한다고 한다. 82%에서 월경시 각혈이 발생하며, 18%에서만 각혈과 함께 호흡곤란, 기침, 흉통 등이 발생한다¹⁾. 대부분 월경 시작 72시간 이내에 증상이 발생한다하는 바¹²⁾, 본 예에서는 반복적으로 월경시 작과 동시에 각혈, 흉통, 호흡곤란, 기침등이 발생하였고 월경이 끝나면 자연소실되었다. 드물게는 증상이 없이 우연히 흉부 단순촬영에서 발견되기도 한다⁶⁾.

폐의 자궁내막증식증의 진단은 가임연령의 젊은 여자에서 매월 반복적으로 월경과 동반되는 각혈, 기흉, 혈흉, 흉통, 호흡곤란, 기침등이 발생하고, 월경이 끝나면 자연적으로 증상이 호전되는 경우, 일단 폐의 자궁내막증식증을 의심하여야 하고, 결핵, 기관지확장증, 폐암, 폐렴, Goodpasture 증후군, 동정맥기형, 폐경색증등 상기 증상들을 유발할 수 있는 질환이 배제될 경우 폐의 자궁내막증식을 진단할 수 있다¹³⁾. 그러나 월경과 동반되어 반복적으로 질환이 발생하는 경우는 폐의 자궁내막증식증에서만 가능하므로 주의깊은 병력청취만으로도 쉽게 진단할 수 있다. 폐실질 자궁내막증식증에서 단순 흉부 촬영은 거의 대부분 정상소견을 보이며¹⁴⁾, 흉부 전산화단층촬영이 병변을 발견하는데 도움이 될 수도 있는 바¹⁵⁾, 흉부 전산화 단층사진상 직경 약 4cm정도 되는 고립성 폐결절이 보이기도하며⁷⁾, 월경주기에 따라 그 크기가 변할 수 있으며 간혹 낭포성 변화를 보일 수도 있다⁸⁾. Katoh등¹⁶⁾은 각혈의 원인이되는 폐혈관의 발견 및 치료적 색전술을 위해 폐 및 기관지동맥조영술을 시행하였으나 병변의 발견에 실패하였다. 출혈위치, 병변

발견 및 조직학적 검사를 위해 기관지경검사를 시행하여야 하며, 필요시 경피적 폐침생검등을 시행할 수도 있다¹⁷⁾. 그러나 기관지경검사로 병변을 정확히 확인하거나 조직검사 및 세포진검사에서 확실히 자궁내막세포를 얻기 힘든 경우가 많으므로¹³⁾, Guidry등은 임상양상이 확실한 경우 진단을 위해서 꼭 기관지경검사를 시행할 필요는 없다고 하였다¹⁸⁾.

폐의 자궁내막증식증에 대한 내과적인 치료는 골반의 자궁내막증식증에서와 비슷한 바, Progesterone¹⁹⁾ 혹은 GnRH agonist인 Leuprolide²⁰⁾ 투여로 가성임신을 유도하거나, Danazol^{9,21~23)} 투여로 가성폐경기를 유도하여 자궁내막조직을 억제시켜 월경 및 동반된 흉부증상을 치료할 수 있다. 투약후 대부분의 경우에서 효과가 있는 반면 투약중지후의 재발이 많다. 폐경기가 되거나 임신을 하게되면 증상이 자연적으로 호전될 수 있다²⁴⁾. 내과적 치료에 실패할 경우 수술적요법을 시행하는데 양측 난소절제술 또는 병변을 포함하여 부분적 폐절제술을 시행할 수 있다^{9,14,24,25)}.

결 론

저자들은 Danazol 치료로 호전된 폐실질의 자궁내막증식증 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Foster DC, Stern JL, Buscema: Pleural and parenchymal pulmonary endometriosis. *Obstet Gynecol* 58:552, 1981
- 2) Lattes R, Shepherd F, Tovell H: A clinical and pathological study of endometriosis of the lung. *Surg Gynecol Obstet* 103:552, 1956
- 3) Luciano AA, Pitkin RM: Endometriosis: approaches to diagnosis and treatment, *Surgery Annual:1984 p* 297 Norwalk, CT, Appleton-Century-Crofts, 1984
- 4) Maurer ER, Schaal JA, Mendez FL: Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. *JAMA* 168:2013, 1958
- 5) 배덕수, 조경훈, 홍순기, 이병익, 김필수, 이효표: 흉막 자궁내막증 1예. *대한산부인과학회지* 31:1150, 1988
- 6) Fraser RG, Pare JA, Pare PD, Fraser RS, Genereux

- GP: Diagnosis of disease of the chest. 3th ed. p 1619, Philadelphia, Saunders, 1989
- 7) Jelihovsky T, Grant AF: Endometriosis of the lung. *Thorax* **23**:434, 1968
 - 8) Assor D: Endometriosis of the lung. *Am J Clin Pathol* **57**:311, 1972
 - 9) Hiroshi S, Katsuyuki H, Koji Y: A case of endometriosis of the lung treated with danazol. *Obstet Gynecol* **66**:67S, 1985
 - 10) Grunewald RA, Wiggins J: Pulmonary endometriosis mimicking acute abdomen. *Postgrad Med J* **64**:865, 1988
 - 11) Griffith RD, Sedlak JB, Little WP: Diaphragmatic pain in pulmonary endometriosis. *South Med J* **81**:89, 1988
 - 12) Karpel JP, Appel D, Merav A: Pulmonary endometriosis. *Lung* **163**:151, 1985
 - 13) William MJ, Charles MT: Pulmonary endometriosis. *Obstet Gynecol* **69**:506, 1987
 - 14) Lawrence HC: Pulmonary endometriosis in pregnancy. *Am J Obstet Gynecol* **159**:733, 1988
 - 15) Hertzanu Y, Heimer D, Hirsch M: Computed tomography of pulmonary endometriosis. *Comput Radiol* **11**:81, 1987
 - 16) Katoh O, Yamada H, Aoki Y, Matsumoto S, Kodo S: Utility of angiogram in patients with catamenial hemoptysis. *Chest* **98**:1296, 1990
 - 17) Grandberg I, Willems JS: Endometriosis of lung and pleura diagnosed by aspiration biopsy. *Acta Cytol* **21**:295, 1977
 - 18) Guidry CG, George RB, Payne DK: Catamenial hemoptysis: A case report and review of the literature. *J La State Med Soc* **142**:27, 1990
 - 19) Svendstrup F, Husby H: Parenchymal pulmonary endometriosis. *J Laryngol Otol* **105**:235, 1991
 - 20) Seltzer VL, Benjamin F: Treatment of pulmonary endometriosis with long-acting GnRH agonist. *Obstet Gynecol* **76**:929, 1990
 - 21) Sanford MR, Daniel HR: Successful treatment of catamenial hemoptysis with danazol. *Obstet Gynecol* **57**:130, 1981
 - 22) Lane LE, Alan FB: Catamenial hemoptysis: new methods of diagnosis and therapy. *Chest* **87**:687, 1985
 - 23) Grim MH, Grady KJ, Golish JA: Bronchopulmonary endometriosis: A rare cause of hemoptysis. *South Med J* **81**:1189, 1988
 - 24) Butler H, Lake KB, Van Dyke JJ: Bronchial endometriosis and bronchiectasis: possible relationship. *Arch Intern Med* **138**:941, 1978
 - 25) Balasingham S, Arulkumaran S, Nadarajah K, Jayaratnam FJ: Catamenial pneumothorax. *Aust N Z J Obstet Gynecol* **26**:88, 1986
 - 26) Horsfield K: Catamenial pleural pain. *Eur Respir J* **2**:1013, 1989