

흉부 자궁내막증에 의한 자연 기흉

— 1예 보고 —

조정수* · 김영실* · 김정택* · 백완기* · 김광호* · 이경희** · 김루시아***

Spontaneous Pneumothorax associated with Thoracic Endometriosis

— Report of a case —

Jung Soo Cho, M.D.*; Young Sam Kim, M.D.*; Joung Taek Kim, M.D.*; Wan Ki Baek, M.D.*
Kwang Ho Kim, M.D.*; Kyung Hi Lee, M.D.**; Lucia Kim, M.D.***

Pneumothorax associated with thoracic endometriosis is a rare clinical entity and it is called catamenial pneumothorax if the recurrence of pneumothorax is related to the period of menstruation. Several hypotheses about its pathogenesis are suggested including spontaneous rupture of the bulla, endometrial implants of the visceral pleura, and passage of air from the genital tract through endometrial fenestration of the diaphragm. Pneumothorax is associated with chest pain and dyspnea within 72 hours of the onset of menses in young women and developed usually at right side. We report a case of 32-year-old woman who had bilateral pneumothorax and thoracic endometriosis confirmed histopathologically in the visceral pleura by thoracotomy.

(Korean J Thorac Cardiovasc Surg 2005;38:518-521)

Key words: 1. Endometriosis
2. Pneumothorax

증례

32세 가정주부가 약 5일간의 흉통과 호흡곤란을 주소로 응급실을 통하여 입원하였다. 환자는 내원 7일 전 최종 월경이 있었고, 내원 전일 악화되어 동네의원을 경유하여 전원되었다. 과거력상 폐질환과 산부인과적 기왕력은 없었고, 흡연력도 없었다. 청진 시 양측 폐야에 호흡음이 감소되어 있었으며, 심음은 정상이었으며, 흉부 타진 상 양측 폐야에 과공명이 있었다. 전원 시 타 병원에서 촬영하

여 동봉된 단순 흉부 촬영상(Fig. 1) 심한 양측 폐허탈 소견을 보였다. 즉시 양측 자발성 긴장성 기흉 진단 하에 흉관삽관술을 시행하였다. 입원 2일째 시행한 흉부전산화단층촬영상 양측 흉벽으로 피하기종이 동반되어 있고, 양측 폐에 1.5 cm 내외의 다발성 원형 낭종 병변이 있는 소견을 보였다(Fig. 2). 우측 기흉은 흉관삽관술 후 1일째부터 공기 누출은 없었고, 단순 흉부 촬영상 양측 폐가 완전히 확장되었으나, 좌측 기흉은 흉관삽관 후에 공기 유출이 계속되어 4일째에 비디오 흉강경술을 실시하였으나 상하

*인하대학교 의과대학 흉부외과학교실

Department of Thoracic and Cardiovascular Surgery, College of Medicine, Inha University, Incheon, Korea

**인하대학교 의과대학 진단방사선과학교실

Department of Diagnostic Radiology, College of Medicine, Inha University, Incheon, Korea

***인하대학교 의과대학 해부병리학과

Department of Pathology, College of Medicine, Inha University, Incheon, Korea

† 본 논문은 2004년도 제36차 추계학술대회에 제목 '양측성으로 발생한 Catamenial Pneumothorax'으로 포스터로 구현되었음.

논문접수일 : 2005년 3월 22일, 심사통과일 : 2005년 5월 7일

책임저자 : 김광호 (411-706) 인천시 중구 신흥동 3가 7-206, 인하대학교 의과대학 흉부외과학교실

(Tel) 032-890-2280, (Fax) 032-890-3099, E-mail: khkim@inha.ac.kr

본 논문의 저작권 및 전자매체의 지적소유권은 대한흉부외과학회에 있다.

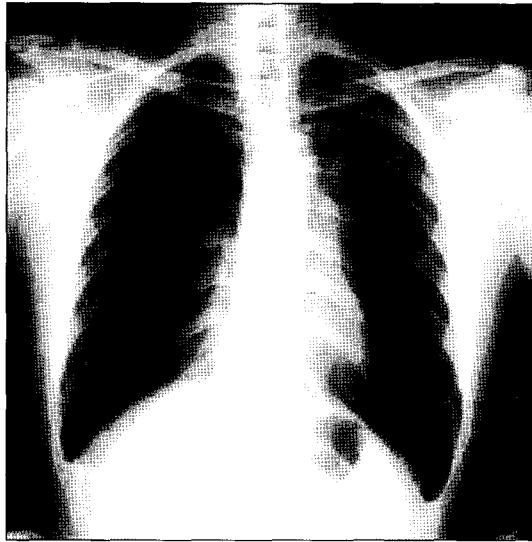


Fig. 1. Chest PA. Chest radiograph shows bilateral hydropneumothorax with compressed right lung and left lower lobe. Left upper lobe is not compressed with suspicious small round lucent lesion.

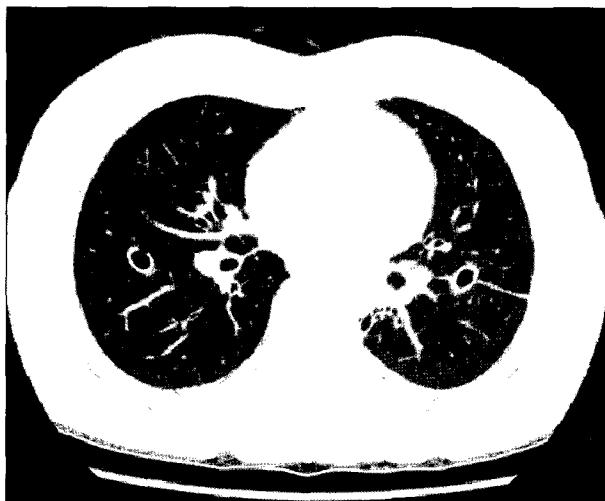


Fig. 2. Chest CT. Hyperresonant CT scan at the aortic root level shows round and thin-walled cysts in both lung fields.

엽에 형성된 유착이 심하여 최소 절개선으로 개흉하였다. 벽측늑막의 비후가 있었으며 상엽과 하엽에 3 cm 크기의 폐기포가 각각 있었고, 횡격막에는 이상소견이 없었다. 폐기포에 대해 각각 쇄기절제술을 실시하고 chromic catgut 3-0으로 연속 봉합하였다. 병리조직검사상 절제된 폐에서 장축 흉막에 난원형 방추세포의 결절성 종식을 보였고, 면역조직학적 염색결과 자궁내막 간질세포가 확인되어,

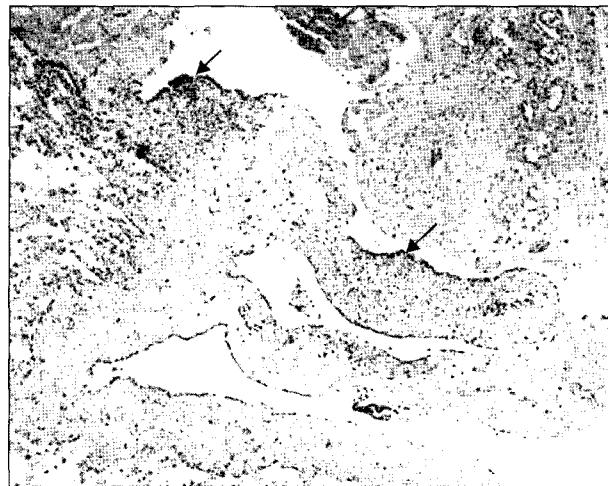


Fig. 3. Pathology. Microscopic finding of pleural endometriosis. There are nodular proliferations of endometrial stromal cells associated with hemorrhage (arrow) in the wall of bullae and visceral pleura (H&E, $\times 200$).

이는 자궁내막증에 합당한 소견이었다(Fig. 3). 우측 흉관은 좌측 수술 후 2일째에 제거하였고 좌측 흉관은 수술 후 3일째에 제거하고 퇴원하였다. 퇴원 후 1주일, 2주일에 시행한 단순 흉부 촬영상 양측 폐허탈 소견은 없었고 5개월이 지난 현재까지 재발없이 잘 지내고 있다.

고 찰

흉부 자궁내막증을 동반한 기흉은 매우 드문 질환으로 월경과 연관되어 발생하는 재발성 기흉으로 나타나게 된다. 1958년 Maurer 등[1]에 의해 처음 기술되었으며, 1972년 Lillington 등[2]에 의해 월경시기와 연관되어 기흉의 재발병력 있는 환자에서 월경성 기흉으로 명명되었다. 흉부 자궁내막조직증으로 인한 기흉과 더불어 월경성 기흉의 발생기전은 아직 명확히 밝혀지지 않았지만, 4가지 가설이 제시되고 있는데, 첫째로 월경기의 자궁경부 점막 소실에 따른 복강 내로의 공기 이동 및 횡격막 결손을 통한 흉막강내로의 진입설[1-4], 둘째로 월경기 호르몬 변화에 따른 폐기포의 파열[3], 셋째로 월경기 프로스타글란딘의 상승에 따른 혈관과 기관지폐포의 수축을 유발함으로서 폐포의 파열을 일으킨다는 가설[4], 마지막으로 월경기에 이소성 자궁내막조직의 박리[4]로 인한 기흉의 발생이다. 본 증례는 네 번째 가설인 장축 흉막에 이소성 자궁내막조직이 월경기에 박리된 것으로 생각된다.

본 예의 경우 월경과 관계된 기왕력이 없어 월경성 기흉

이라고 정의하기에는 문제가 있을 것으로 생각되나 수술에서 얻은 폐기포조직에서 자궁내막증이 판명되어 월경성 기흉으로 칭하여도 되지 않을까 생각한다. Korom 등[5]에 의하면 지금까지 전 세계적으로 229예의 월경성 기흉에 대한 보고가 있는데, 평균 발병 연령은 34.2 ± 6.9 세이고, 이 중 210 (91.7%)예가 우측에 발생하였고, 11 (4.8%)예가 좌측에 발생하였으며, 8 (3.5%)예가 양측에 발생하였다. 우측에 호발하는 이유는 자궁내막증 조직의 복강 내 이동 시 복수의 시계방향의 이동 경로 - 좌측 복강 내 구창(peritoneal gutter)을 통한 아래쪽 이동과 우측 복강 내 구창을 통한 위쪽으로 이동 - 때문이라는 가설[6]과 간의 피스톤 운동을 통한 복강 내 공기 및 복수의 횡격막 통과가 좌측에 비해 우측에 활발할 것이라는 가설[6]이 있다. 본 예와 같이 횡격막에 이상이 없이 늑막이나 폐에 자궁내막증이 있어 기흉이 발생하는 경우는 아주 드물어 Alfiano 등[7]과 Alfiano 등[8]에 의하여 1예씩 보고된 바 있다.

월경성 기흉의 주 증상은 흉막통이며, 간혹 복통을 호소하는 경우도 있어 수술적 치료 결정에 혼선을 주기도 한다. 이는 횡격막 결손, 장막의 탈장, 제대착상(coincident umbilical implantation)[9] 등을 원인으로 보고 있다. 진단은 월경과 연관되어 발생하는 재발성 기흉 병력과 임상증상을 기초로 하기 때문에 세심한 병력 청취 및 이학적 검사가 요구되어진다. 또한 재발성 기흉의 수술적 치료 시 얻은 병리조직을 통한 자궁내막조직의 진단을 통해 이루어진다. 본 증례 역시 기흉의 수술 치료를 통해 얻은 병리조직에서 자궁내막 조직의 진단이 이루어졌다. 치료는 수술적 치료와 더불어 호르몬 치료로 Gnarl-analogs 투여, pleurodesis가 가능하며[4], 골반 내 자궁내막증 치료 병행 등이 제안되어왔다. Korom 등[5]에 의하면 지금까지 보고 된 229예 중 154 (79%)예가 수술적 치료를 받았으며, 나머지는 호르몬 치료, 흉관삼관술, 난관봉합술이 각각 13.5%, 1%, 1%였으며, 그 외는 추적관찰 소실 등이었다.

수술 치료는 자궁내막증 병변을 용이하게 관찰하기 위해 월경 시 시행하는 것이 좋으며 횡격막 시술을 병행하는 것이 재발률 감소에 유의한 차이를 보이고 있다[5]. 이는 수술적 치료를 한 증례 중 38.8%가 횡격막 결손이나 횡격막에 자궁내막증을 동반[6]하였고, 이러한 횡격막 병변이 재발에 결정적인 역할을 한다고 보고 있다. 호르몬 치료 역시 재발률 감소에 유의한 치료법[10]으로 보고되어 있으나, 장기적인 사용은 hypoestrogen으로 인한 골다공증의 발생 증가 등의 부작용이 있을 것으로 생각된다.

월경성 기흉의 진단과 치료 시 주목해야 할 것은 세심한

병력 청취를 통한 월경성 기흉의 의심과 흉강경을 이용한 효과적인 수술기법의 적용이다. 흉강경을 통한 접근 및 수술기법은 병변에 대한 용이한 관찰을 위해 월경기에 시행되어야 하는 것이 좋으며, 횡격막에 대한 검사와 이에 따른 횡격막에 대한 시술이 필수적이다. 또한 골반 자궁내막증 증상이 없더라도 산부인과적 검사를 통한 골반 자궁내막증 치료가 병행될 수 있도록 해야 하며, 수술 치료의 실패 시 호르몬 치료가 선택적으로 적용되어야 할 것이다.

본 증례는 전형적인 월경성 기흉이 월경 주기에 따른 재발성, 우측 편측 성으로 발생하는 것과 달리 이전 월경과 연관된 기흉 병력 없이 초회, 양측성으로 발생하여 수술을 통해 진단된 증례로서 우측 기흉은 흉관삼관으로만 치료하였기에 자궁내막증과의 연관관계는 규명할 수 없었다. 그러나 좌측 폐에서 자궁내막증의 병변이 발견된 것으로 보아 좌우측 기흉의 발생원인이 동일할 것으로 생각되어진다. 향후 본 증례와 같이 양측성 발생 및 횡격막 결손이 없는 증례에 대한 발생기전 및 특이 사항에 대한 연구가 필요하다 하겠다.

참 고 문 헌

1. Maurer ER, Schaal JA, Mendez FL Jr. *Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm*. JAMA 1958;168:2013-4.
2. Lillington GA, Mitchell SP, Wood GA. *Catamenial pneumothorax*. JAMA 1972;219:1328-32.
3. Cowl CT, Dunn WF, Deschamps C. *Visualization of diaphragmatic fenestration associated with catamenial pneumothorax*. Ann Thorac Surg 1999;68:1413-4.
4. Blanco S, Hernando F, Gomez A, et al. *Catamenial pneumothorax caused by diaphragmatic endometriosis*. J Thorac Cardiovasc Surg 1998;116:179-80.
5. Korom S, Canyurt H, Missbach A, et al. *Catamenial pneumothorax revisited: Clinical approach and systematic review of the literature*. J Thorac Cardiovasc Surg 2004;128: 502-8.
6. Suginami H. *A reappraisal of the coelomic metaplasia theory by reviewing endometriosis occurring in unusual sites and instances*. Am J Obstet Gynecol 1991;165:214-8.
7. Alfiano M, Venissac N, Mouroux J. *Recurrent pneumothorax associated with thoracic endometriosis*. Surg Endosc 2000; 14:680.
8. Alfiano M, Roth T, Broet SC, et al. *Catamenial pneumothorax: a prospective study*. Chest 2003;124:1004-8.
9. Rachagan SP, Zawiah S, Menon A. *Extrapelvic endometriosis and catamenial pneumothorax*. Med J Malaysia 1996; 51:480-1.
10. Olive DL, Pritts EA. *Treatment of endometriosis*. N Eng J Med 2001;345:266-75.

=국문 초록=

흉부 자궁내막증에 의한 기흉은 드문 질환으로 일반적으로 월경과 연관되어 재발하여 발생하는 경우 월경성 기흉(Catamenial pneumothorax)으로 명명된다. 발생 기전은 아직 명확히 밝혀지지 않았으나, 단순 폐기포의 파열, 장축 늑막에 형성된 자궁내막조직에 의하여 발생된 경우, 횡격막에 형성된 자궁내막조직에 의한 횡격막결손부위를 통한 공기의 이동 등으로 설명되고 있다. 전형적인 월경성 기흉은 주로 30~40대 여성에서 월경 후 48~72시간 안에 발생하며 편측성으로 우측에 호발하는 것으로 알려지고 있다. 본 저자들은 양측 성으로 발생한 자발성 기흉 환자에서 시행한 개흉술로 절제된 폐의 병리조직검사 소견상 ‘자궁내막증(endometriosis)’으로 확진된 1예를 경험하였기에 보고한다.

중심 단어 : 1. 자궁내막증
2. 기흉