

TWO CASES OF CATAMENIAL PNEUMOTHORAX

Chan Kyung Chung, MD, Yeon Soo Jung, MD, Jeong Hyeon Kim, MD, Young Sik Choi, MD, Seok Kyo Seo, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Institute of Women's Life Medical Science, Severance Hospital, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Endometriosis is usually found in pelvic cavity such as in ovary. But, endometriosis has been described in other organs, although rare, such as intestine, kidney, lung, liver, gall bladder, and pancreas. Catamenial pneumothorax is defined as a recurrent pneumothorax within 72 hours of onset of menstruation and it is a rare cause of spontaneous pneumothorax. We, hereby, report two cases of successfully treated catamenial pneumothorax by gonadotrophin releasing hormone agonist with progestin or oral pill after surgical treatment.

Keywords: Endometriosis; Catamenial pneumothorax; GnRH agonist; Progestin; Oral pill

자궁내막증은 자궁내막의 선(gland)과 기질(stroma)이 자궁 밖에 위치하는 것으로 정의할 수 있으며 생리통, 성교통, 만성 골반통 및 불임 등을 야기하는 만성적인 부인과 질환이다. 전체 여성의 약 10%에서 발생하는 상대적으로 흔한 질환으로 난소를 비롯한 골반내에 발생하는 것이 보통이나 장, 신장, 폐, 간, 담낭, 췌장 등의 다양한 부위에서 발생하는 증례가 보고되고 있다.

월경성 기흉(catamenial pneumothorax)은 일반적으로 월경이 시작된 이후 72시간 이내 발생하는 재발성 기흉으로 정의되며, 1950년도부터 보고되고 있지만 최근까지도 매우 드문 질환으로 생각되고 있다 [1,2]. 저자들은 월경성 기흉을 주소로 내원한 폐의 자궁내막증 환자 2명을 수술적 치료와 약물치료를 병행하여 성공적으로 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

1. 증례 1

환자: 주 00, 40세

산과력: 2-0-0-2, 자연분만

월경력: 초경은 16세, 생리주기는 28일로 규칙적이고 기간은 6일이었다. 생리통은 없었다.

과거력: 지속적인 자발기흉(spontaneous pneumothorax)의 재발 이외에 복강수술 등 특이한 과거력은 없었다.

가족력: 특이한 가족력은 없었다.

현병력: 2008년 4월에 우측 자발기흉으로 내원하여 폐쇄흉강삽관술(closed thoracostomy) 후 증세가 호전되어 퇴원하였으나 2008년 7월에 재발하여 흉강경하 우측 폐의 썬기 절제술과 두 차례의 흉막유착술(pleurodesis)을 시행받았다. 2008년 9월과 10월에도 지속적으로 재발

하여 흉강천자술(thoracentesis)을 두 차례 시술받았으며, 모두 생리주기와 연관되어 발생하여 월경성 기흉이 의심되었다. 2010년 1월에는 폐쇄흉강삽관술을 시행받았으며 2010년 9월에는 횡경막 수복술을 시행받았다. 횡경막 수복술 당시 자궁내막증으로 의심되는 병변이 발견되었다(Fig. 1). 2011년 4월에 여섯 번째로 재발하여 폐쇄흉강삽관술 및 흉막유착술을 시행받고 산부인과로 의뢰되었다.

신체검사 소견: 전신상태는 비교적 양호하였다. 신장 160 cm, 체중 50 kg였고, 혈압 100/58 mm Hg, 맥박 82회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.7°C였다. 골반진찰상 특이 소견은 보이지 않았다.

검사실 소견: 입원 당시 시행한 단순흉부촬영에서 우측 폐에 기흉 소견을 보였다(Fig. 2). 일반혈액검사, 요검사, 간기능검사, 신기능검사, 심전도검사 결과는 모두 정상이었다. 종양표지자검사에서 cancer antigen (CA) 125는 정상 범위였다.

경과 및 치료: 2011년 4월부터 2011년 8월까지 생식샘자극호르몬 방출호르몬작용제(gonadotropin-releasing hormone agonist, GnRH

Received: 2012.5.30. Revised: 2012.8.10. Accepted: 2012.10.9.

Corresponding author: Seok Kyo Seo, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Yonsei University College of Medicine, 50 Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul 120-749, Korea

Tel: +82-2-2228-2236 Fax: +82-2-313-8357

E-mail: tudeolseo@yuhs.ac

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 © 2012. Korean Society of Obstetrics and Gynecology

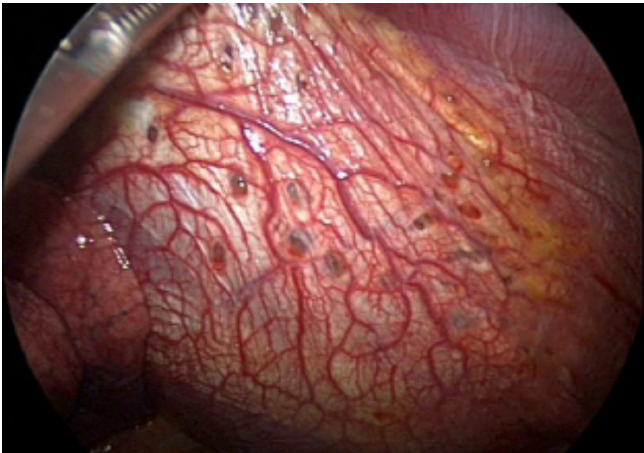


Fig. 1. Intra-operative photograph depicting diaphragm with endometrial deposits seen as hemorrhagic discoloration (case 1).

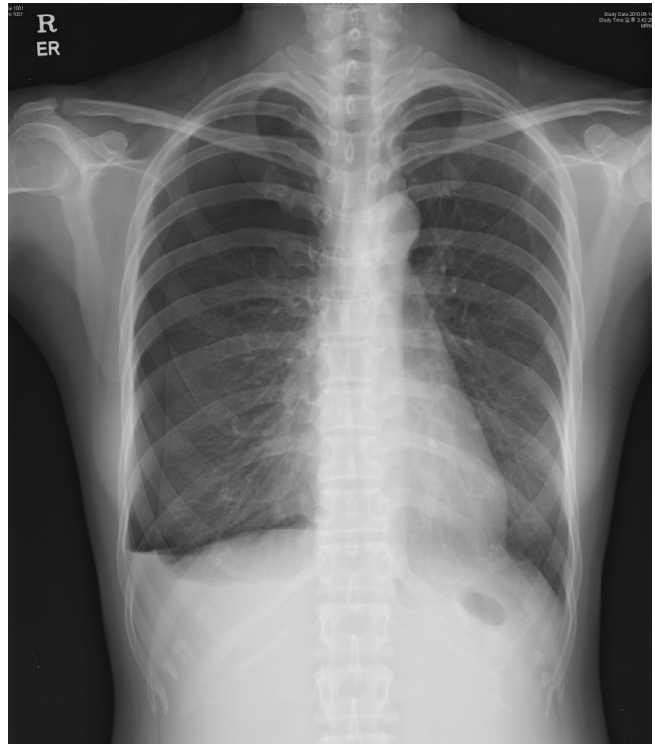


Fig. 3. Chest radiograph showing a pneumothorax (case 2).

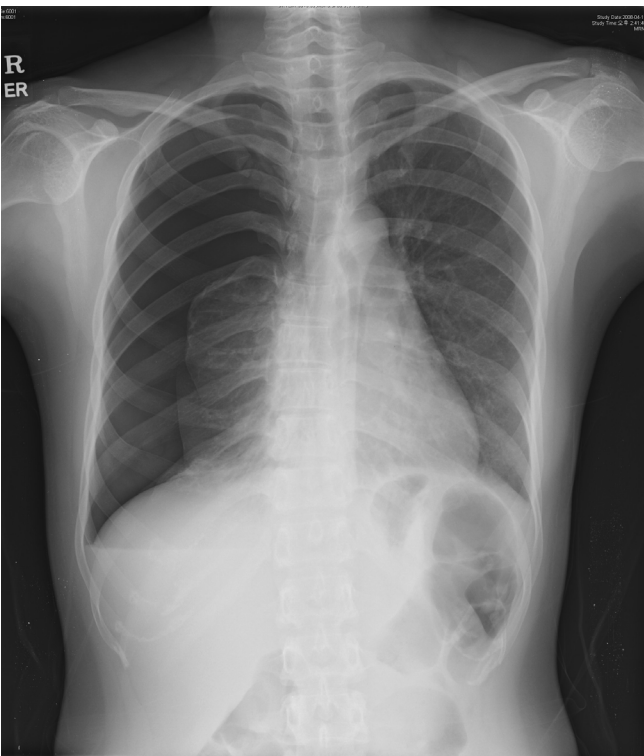


Fig. 2. Chest radiograph showing a pneumothorax (case 1).



Fig. 4. Gross findings of resected diaphragm (case 2).

agonist)인 leuprorelin acetate 3.75 mg을 여섯 차례 투여하였고 이후 2012년 2월까지 프로그스테론 제제인 medroxy progesteron acetate 30 mg을 경구투여하였다. 현재 환자는 기흉의 재발 없이 산부인과 외래 추적관찰 중이다.

2. 증례 2

환 자: 정 O O, 38세

산과력: 1-0-1-1, 자연분만

월경력: 초경은 15세, 생리주기는 28일로 규칙적이고 기간은 6일이었다. 생리통은 약간 있었으나 진통제를 복용할 정도는 아니었다고 한다.

과거력: 복강수술 등 특이한 과거력은 없었다.

가족력: 특이한 가족력은 없었다

현병력: 2010년 9월 월경과 함께 시작된 우측 흉통으로 응급실 내원하여 단순흉부촬영에서 우측 기흉을 진단받고(Fig. 3), 흉강경하 우측 폐의 빼기절제술, 흉막절제술, 횡경막수복술을 시행받았다(Fig. 4). 수술 소견에서 월경성 기흉이 의심되어 산부인과로 의뢰되었다.

신체검사 소견: 전신상태는 비교적 양호하였다. 신장 160 cm, 체중 50 kg였고, 혈압 136/84 mm Hg, 맥박 95회/분, 호흡수 16회/분, 체온

36.8°C였다. 골반진찰상 특이소견은 보이지 않았다.

검사실 소견: 입원 당시 시행한 단순흉부촬영에서 우측 폐에 기흉 소견을 보였다(Fig. 3). 일반혈액검사, 요검사, 간기능검사, 신기능검사, 심전도검사 결과는 모두 정상이었다. 중앙표지자검사서 CA 125는 정상 범위였다. 골반초음파에서도 특이 소견은 보이지 않았다.

경과 및 처치: 2010년 9월부터 2011년 2월까지 GnRH agonist인 triptorelin acetate 3.75 mg을 여섯 차례 투여하였고 이후 외국에 거주하는 관계로 외래 내원하지 않았다. 투여 후 첫 번째 생리기간에 재발하여 외국에서 폐쇄흉강삽관술을 시행받았고 이후 2차례 재발하였으나 증상이 미미하여 추가적인 수술은 받지않았다. 2011년 11월부터 주기적인 경구 피임약을 복용하고 있으며, 기흉의 재발 없이 산부인과 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

월경성 기흉은 자발기흉의 드문 원인 중의 하나로 발생률은 자발기흉으로 진단된 환자의 2.8%–5.6%로 보고되고 있다. 일본에서 8년 동안 5,336명의 자발기흉 환자를 대상으로 시행한 후향적 연구를 살펴보면 664명의 환자가 여성이었고 그 중 6명의 여성이 월경성 기흉으로 보고되었으며[3], Mayo Clinic에서 21년간 시행한 연구에서는 196명의 자발기흉 여성 중 11명의 여성이 월경성 기흉으로 보고되었다[4]. 우리나라에서는 월경성 기흉의 경우 산부인과학회지에는 수술 후 장기간 GnRH agonist를 사용하여 치료한 1증례만이 보고되어 있으며[5], 흉부외과학회지에는 수술적 치료로 회복된 4증례가 보고되어 있다[6–8]. 또한, 월경성 기흉에 대한 인식이 높아지고 자세한 문진과 수술 시 주의 깊은 시진을 시행한 결과 자발기흉의 원인으로 월경성 기흉이 33% 차지하였다는 논문이 보고되기도 하였다[9]. 따라서, 자발기흉으로 내원한 여성의 경우에는 질병의 원인으로 반드시 월경성 기흉의 가능성을 생각하여야 한다. 첫 번째 증례의 경우 자발기흉이 여섯 차례 재발한 후에 산부인과로 의뢰되었던 경우로 재발성 기흉의 경우 반드시 생리주기와 관련성이 있는지 확인하는 것이 중요하다는 것을 보여주는 증례라고 할 수 있다. 흉강경 소견상 자궁내막증으로 의심되었던 부분이 조직검사에서 중피 과형성(reactive mesothelial hyperplasia with inflammatory cell infiltration)으로 보고되어 확진되지 않았는데, 자궁내막증의 조직학적 진단은 조직검사에서 자궁내막의 선이나 기질이 존재해야 하며, 이러한 진단기준을 적용하면 자궁내막증을 조직학적으로 증명할 수 있는 경우는 50%–65% 정도로 알려져 있다. 반면에, 복강경수술에서 자궁내막증 병변이 보이지 않는 경우에는 자궁내막증을 배제할 수 있을 정도로 복강경수술이 믿을 만한 방법임이 보고되기도 하였다[10]. 따라서, 월경성 기흉을 진단하기 위해서는 임상적 소견과 흉강경 소견이 중요할 것으로 생각되며, 조직검사에만 의존할 경우에는 약물치료의 시기를 놓쳐 재발률과 수술적 치료의 필요성이 증가할 수 있다. 두 번째 증례는 처음 자발기흉 진단 시 월경성 기흉이 의심되어 산부인과로 의뢰되었던 경우로 자세한 문진과 수술 시 주의 깊은 시진을 통한 빠른 진단이 환자의 예

후와도 밀접한 관련이 있음을 보여주는 증례라고 할 수 있다.

월경성 기흉의 발생기전으로는 세 가지 가설이 제시되고 있다[11]. 첫 번째는 중피세포(mesothelium)와 자궁내막세포가 동일한 발생학적 기원으로부터 유래한다는 체강상피 화생설(coelomic metaplasia)으로써 어떠한 자극이 존재하는 상황에서 골반내 복막을 구성하는 세포가 분화를 일으켜 자궁내막증이 발생한다는 가설이다. 두 번째는 자궁이나 골반에서부터 임파선이나 혈관을 타고 전파된다는 가설이며, 세 번째는 월경혈의 역류로 인해 자궁내막세포가 복막과 횡격막을 통과하여 생긴다는 가설이다. 하지만 어떠한 가설도 월경성 기흉의 모든 임상적, 병리학적 특징을 설명할 수 없으며 이 같은 사실은 월경성 기흉이 다발성 원인에 의한 질병임을 의미한다.

월경성 기흉 치료는 수술적 치료와 약물치료를 포함한다. 수술적 치료의 경우 비디오흉강경수술(video-assisted thoracic surgery)이 진단과 치료에 중요한 역할을 하며, 3 cm 이상의 횡격막 절제가 필요한 경우 소개흉술(minithoracotomy)이 추천되기도 한다[12]. 수술 시에는 병변의 위치와 범위를 정확히 파악하여 남는 조직이 없도록 하는 것이 재발을 방지하기 위해 가장 중요하며, 환자가 주로 젊은 여성인 만큼 피부 절개를 가능한 최소화 하여야 한다. 약물치료는 경구 피임약, 프로그스테론 제제, GnRH agonist 등을 사용해 볼 수 있지만 약물치료만 단독으로 사용하였을 때에는 재발률이 50% 정도까지 높게 보고되고 있으며[13], 한 연구에 의하면 100%까지 보고되었다[9]. 월경성 기흉은 수술적 치료가 약물치료보다 재발률이 낮으며, 수술적 치료의 재발률은 6개월, 12개월이 각각 5%와 25%였다[13]. 수술적 치료와 약물치료를 함께 시행한 경우에는 조금 더 낮은 재발률을 보이며, 이러한 사실들을 고려할 때 월경성 기흉의 치료는 수술 후 6개월간 GnRH agonist를 사용하는 순차적인 치료법을 제안할 수 있다[11,14]. 첫 번째 증례의 경우도 수술적 치료만을 시행하였을 때에는 여섯 차례나 재발을 했지만 수술 후 GnRH agonist를 포함한 약물치료를 시행한 후에는 현재까지 재발 없이 경과관찰 중이다.

최근에 복강내 발생한 자궁내막증의 경우 수술 후 6개월간 GnRH agonist를 사용한 후 경구 피임약을 추가적으로 사용할 경우 자궁내막증의 재발을 보다 효과적으로 줄일 수 있다는 보고가 있으며[15], 이는 복강외 발생한 자궁내막증의 경우에도 적용해 볼 수 있을 것으로 생각된다. 첫 번째 증례의 경우 수술 후 6개월간 GnRH agonist를 사용한 후 프로그스테론 제제를 6개월간 추가 복용하였는데, 이전에 여섯 차례 재발한 과거력이 있었음에도 불구하고 재발 없이 경과관찰 중이며, 두 번째 증례의 경우 GnRH agonist만 6개월간 사용하였는데 경구 피임약 복용 이후에는 재발 없이 경과관찰 중이나 첫 생리기간에 재발하여 폐쇄흉강삽관술을 시행받았다. 따라서 GnRH agonist를 사용한 후 경구피임약이나 프로그스테론 제제를 사용한 추가적인 치료가 재발의 방지에 더욱 효과적일 가능성이 있으며, 이는 지속적인 연구가 필요할 것으로 생각된다. 산부인과학회지에 보고된 증례의 경우 수술 후 6개월간 GnRH agonist를 사용한 후 재발하여 이후에도 GnRH agonist를 18차례 사용하면서 에스트로겐-프로그스테론 배가요법(add-back therapy)을 시행하였는데[5], 이러한 치료도 지속적으로 재발하는 월경

성 기흉을 치료하는 효과적인 방법 중의 하나가 될 수 있으나 골소실의 위험성이 높다고 하겠다.

결론적으로 월경성 기흉의 경우 자세한 문진과 수술 시 주의 깊은 시진을 통한 빠른 진단, 적극적인 수술, 약물치료와 외래 추적관찰 등이 포함된 다각적 접근이 치료에 필수적이라는 것을 알 수 있다. 이러한 치료에도 불구하고 재발의 문제점은 여전히 풀리지 않고 있으며, 이는 월경성 기흉 환자의 발생기전 규명과 치료법에 대한 조금 더 많은 연구가 필요함을 시사한다.

References

- Alifano M, Trisolini R, Cancellieri A, Regnard JF. Thoracic endometriosis: current knowledge. *Ann Thorac Surg* 2006;81:761-9.
- Maurer ER, Schaal JA, Mendez FL Jr. Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. *J Am Med Assoc* 1958;168:2013-4.
- Nakamura H, Konishiike J, Sugamura A, Takeno Y. Epidemiology of spontaneous pneumothorax in women. *Chest* 1986;89:378-82.
- Shearin RP, Hepper NG, Payne WS. Recurrent spontaneous pneumothorax concurrent with menses. *Mayo Clin Proc* 1974;49:98-101.
- Kim MG, Kim CH, Lee SR, Ju DH, Kim SH, Chae H, et al. A case of pulmonary endometriosis presenting with catamenial pneumothorax. *Korean J Obstet Gynecol* 2007;50:1576-80.
- Cho JS, Kim YS, Kim JT, Baek WK, Kim KH, Lee KH, et al. Spontaneous pneumothorax associated with thoracic endometriosis: report of a case. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2005;38:518-52.
- Kim DJ, Kang EH, Ryu KM, Kim TH, Jheon S, Sung SW. Thoracoscopic surgery for catamenial pneumothorax. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2006;39:328-31.
- Lee JG, Paik HC, Lee DY, Haam SJ. Surgical treatment of catamenial pneumothorax: a report of two cases. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2008;41:285-8.
- Marshall MB, Ahmed Z, Kucharczuk JC, Kaiser LR, Shrager JB. Catamenial pneumothorax: optimal hormonal and surgical management. *Eur J Cardiothorac Surg* 2005;27:662-6.
- Wykes CB, Clark TJ, Khan KS. Accuracy of laparoscopy in the diagnosis of endometriosis: a systematic quantitative review. *BJOG* 2004;111:1204-12.
- Alifano M. Catamenial pneumothorax. *Curr Opin Pulm Med* 2010;16:381-6.
- Alifano M, Jablonski C, Kadiri H, Falcoz P, Gompel A, Camilleri-Broet S, et al. Catamenial and noncatamenial, endometriosis-related or nonendometriosis-related pneumothorax referred for surgery. *Am J Respir Crit Care Med* 2007;176:1048-53.
- Joseph J, Sahn SA. Thoracic endometriosis syndrome: new observations from an analysis of 110 cases. *Am J Med* 1996;100:164-70.
- Alifano M, Roth T, Broët SC, Schussler O, Magdeleinat P, Regnard JF. Catamenial pneumothorax: a prospective study. *Chest* 2003;124:1004-8.
- Lee DY, Bae DS, Yoon BK, Choi D. Post-operative cyclic oral contraceptive use after gonadotrophin-releasing hormone agonist treatment effectively prevents endometrioma recurrence. *Hum Reprod* 2010;25:3050-4.

월경성 기흉 2예

연세대학교 의과대학 세브란스병원 산부인과학교실

정찬경, 정연수, 김정현, 최영식, 서석교

자궁내막증은 난소를 비롯한 골반내에 발생하는 것이 보통이나 장, 신장, 폐, 간, 담낭, 췌장 등의 다양한 부위에서 발생하는 증례가 보고되고 있다. 월경성 기흉(catamenial pneumothorax)은 일반적으로 월경이 시작된 이후 72시간 이내 발생하는 재발성 기흉으로 정의되며, 자발기흉(spontaneous pneumothorax)의 드문 원인 중 하나이다. 저자들은 월경성 기흉 2예를 수술적 치료 후 생식샘자극호르몬방출호르몬작용제(gonadotropin-releasing hormone agonist)와 함께 프로그스테론 제제 또는 경구피임약을 사용한 약물치료를 통하여 성공적으로 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어: 자궁내막증, 월경성 기흉, 생식샘자극호르몬방출호르몬작용제, 프로그스테론, 경구피임약