

회음부에 발생한 재발된 자궁내막증 1예

— 일부 항문괄약근의 침범 —

조선대학교 의과대학 외과학교실

김정용

=Abstract=

Perineal Endometriosis: Report a Case and Review of Literatures

Cheong Yong Kim, M.D.

Department of Surgery, College of Medicine, Chosun University

Endometriosis is commonly developed at pelvic cavity but sometimes located at other sites. Perineal endometriosis is a rare disease that is usually occurred at episotomy scar. Though it can be cured by complete local excision, incomplete excision would make recurrence. Author report a experience of recurrent perineal endometriosis involving a part of external anal sphincter and review of literatures.

Key Word: Perineal endometriosis

서 론

1860년 Rokitanski¹⁾에 의해 자궁내막조직이 자궁내막이외의 부위에 위치하는 자궁내막증을 보고한 이래 자궁내막증은 여러 부위에서 발생한다고 알려졌다. 발생부위는 주로 골반내 기관인 난소, 자궁인대 등에 발생하며 직장질중격, 골반복막, 충수돌기, 자궁경부등에서도 흔히 발생한다. 이외에 드물지만 제부, 탈장낭, 개복술 및 회음절개술 반흔, 상지, 대퇴, 흉막강 및 심막강에도 발생이 보고되어 있다²⁾. 이에 본 저자는 조선대학교 의과대학 외과학교실에서 비교적 드문 회음절개 부위에 생긴 재발된 자궁내막증 1예를 경험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자: 추○양, 33세

산과 병력: 2-0-2-2의 산과력을 지닌 환자로 16세 초경후 월경은 월경통 없이 28~30일 주기로 규칙적이며 지속기간은 3~4일이었다. 1988년 2번째 아기 분만 후 2차례 인공유산 경험이 있음.

현병력: 1990년 봄부터 월경전에 시작하여 약 15일 간 지속되는 회음절개부위에 통통을 지닌 결절이 촉지되어 본원 산부인과에서 1991년 4월 입원하여 국소마취하에 1×1.5 cm 크기의 갈색 결절을 제거하여 회음부 자궁내막증으로 판명되었다. 1993년 10월부터 수술부위에 결절이 다시 촉지되어 danazol 400 mg/d로 2개월간 치료하였으나 상기 결절이 점점커지고 통통이 더욱 심해져서 본원 외과로 전과되었다. 이학적 소견상 항문연 7시 방향에 기왕의 절개부위에서 3×4 cm 크기의 firm, ovoid, tender mass를 촉지할 수 있었으며 직장수지 검사 및 항문경 검사상 직장벽의 침범은 없음을 알 수 있었다.

수술 소견: 마취는 saddle block을 실시하고

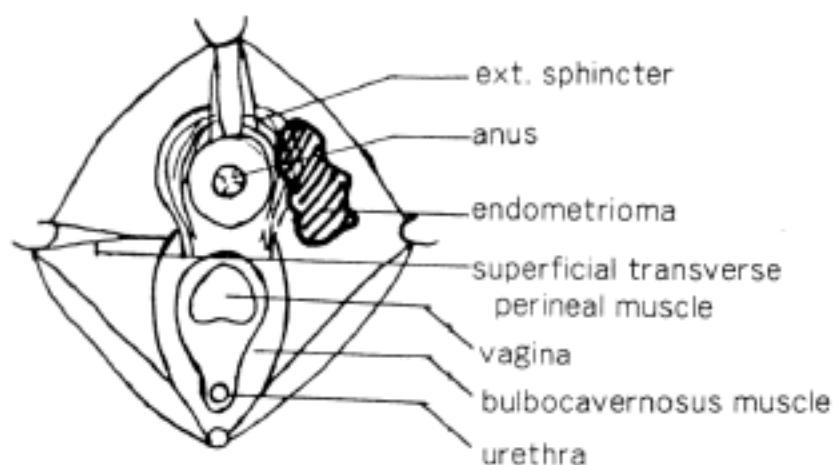


Fig. 1. Anatomic location of perineal endometrioma
(The patient was prone).

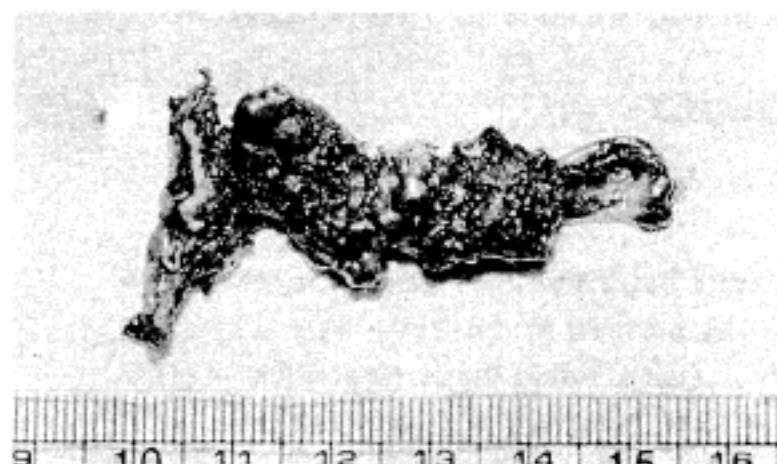


Fig. 2. Biopsy specimen: 4×5 cm sized mass extending from episiotomy scar to external anal sphincter.

prone Jack-knife 위치하에 ischiorectal space 및 perianal space에 주로 위치하며 항문 팔약근 일부를 침범하는 4×5 cm 크기의 결절을 피부를 포함하는 완전 절제후 약해진 팔약근을 2.0 black silk로 보강하였다(Fig. 1, 2).

조직학적 소견: 병리 검사상 자궁내막의 선 및 기질을 확인하였다(Fig 3, 4).

수술 후 결과: 환자는 특이한 사항없이 술후 5일째 퇴원하였으며 호르몬 요법 등은 시행하지 않았고 현재 까지 재발의 증거는 없다.

고 찰

회음부 자궁내막증은 1923년 Schickele³⁾이 보고한 이래 1921년 Sampson⁴⁾에 의해서 임상적 및 병리학적으로 독립된 하나의 질환으로 정의되었고 Prince와

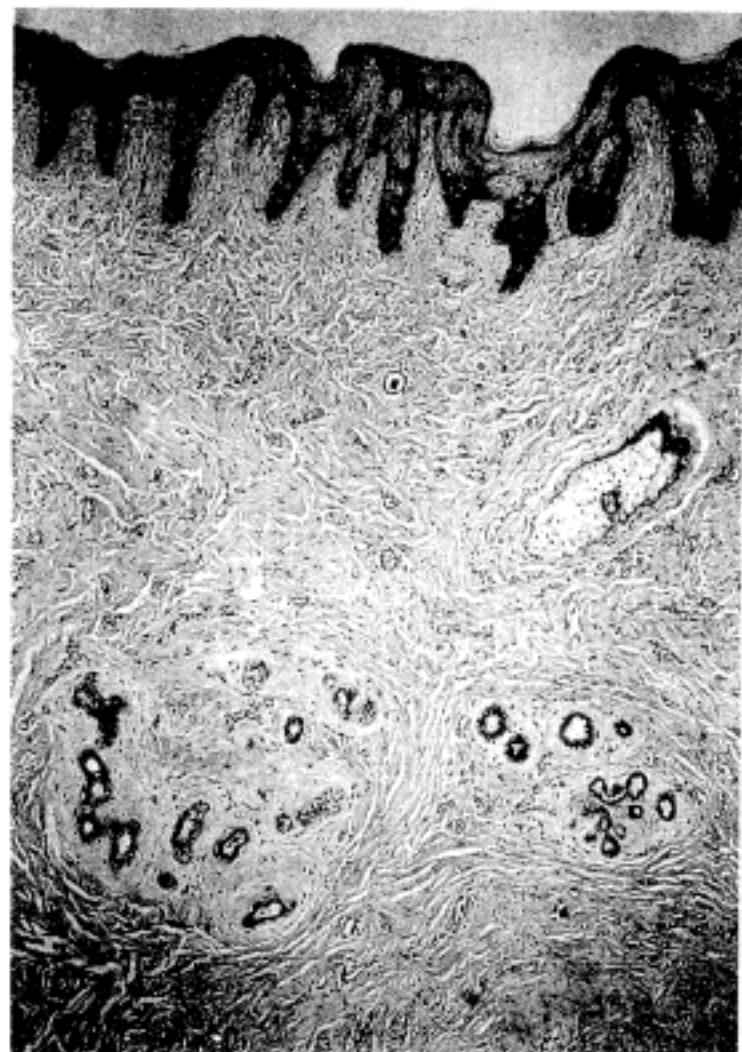


Fig. 3. Photograph shows myxoid stroma with hemorrhagic enlarged glands underlying normal skin(H & E, ×40).

Abrams⁵⁾가 1957년 25예를 모아 발표한 이래 이에 대한 많은 증례보고 및 문헌 고찰이 이루어져 왔다^{6~22)} (Table 1).

회음부 자궁내막증의 발생기전은 아직까지 확실하지는 않으나 Sampson⁴⁾은 분만, 회음부 손상, 자궁 소파술, 유산 혹은 질벽 성형술 등 수술적 손상부위에 자궁내막의 직접 이식에 의한다는 transplantation 설을 주장하였는데 회음부 자궁내막증 환자 거의 대부분이 위의 손상을 동반하고 있기에 가장 타당성이 있으나 Pollack¹⁸⁾의 회음부 손상없는 1예를 고려컨데 이 가설이 모두에게 적용될 수는 없는 것 같다. 그외의 발생기전의 가설로는 Javart²³⁾의 임파 또는 혈류전이설이나 이는 회음부의 임파 및 혈류 역학성 타당성이 적으며, Navak²⁴⁾의 체강화생설 또한 회음부 자궁내막증의 설명이 불가능하다. 혹자는 유전자설²⁵⁾이나 자각면역설을 주장하기는 하나 자궁내막증의 발

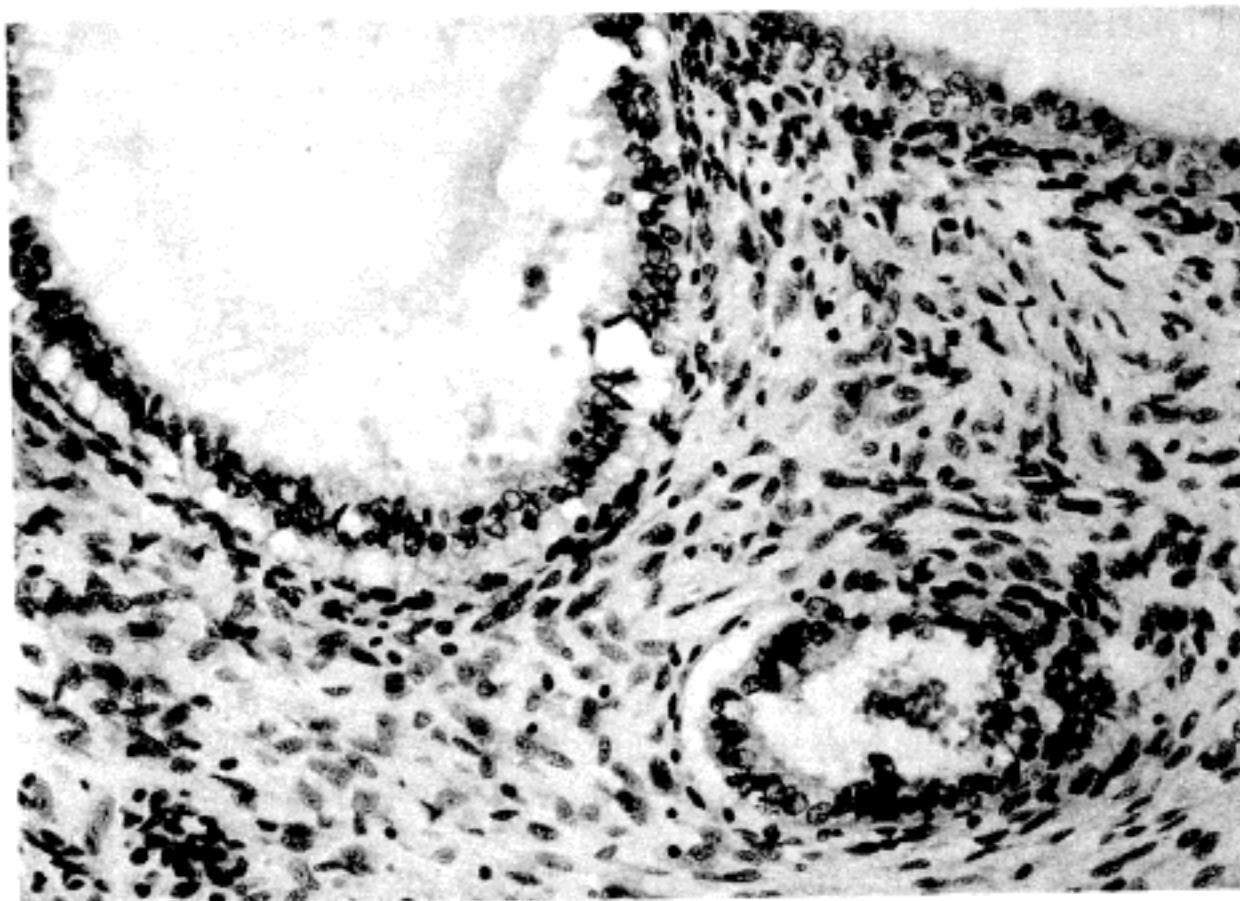


Fig. 4. Glands, stroma and subnucleus vacuole are noted(H & E, $\times 400$).

Table 1. Reported cases of perineal endometriosis(Review of English and Korean literatures)

Author(year)	Nature of study	No. of cases	Location of lesion
Prince et al(1957) ⁶	Case report	1	Anterior(right) to anus, episotomy site
	Literature review	25	Not specified
Trarnpuz(1962) ⁷	Case reports	5	Anterior(right) to anus, episotomy site
McGivney et al(1966) ⁸	Case report	1	Right to anus episotomy site
Minvielle et al(1968) ⁹	Case report	1	Anterior to anus
Ramsey(1971) ¹⁰	Case report	1	Right of anal verge
Paull et al(1972) ¹¹	Case reports	15	Episotomy site
Swerdlow(1975) ¹²	Case report	1	Midline and anterior to anus
Gordon et al(1976) ¹³	Case reports	3	Anterior(right) to anus
		1	Anterior(left) to anus
		1	Midline and anterior to anus
Sully(1977) ¹⁴	Case reports	2	Episotomy site
Hambrick et al(1979) ¹⁵	Case reports	4	Episotomy site
Wittich(1982) ¹⁶	Case report	1	Left to anus, episiotomy site
곽주경(1986) ¹⁷	Case report	1	Episotomy site
Salamalekis(1990) ¹⁸	Case reports	4	Episotomy site
Pollack et al(1990) ¹⁹	Case reports	1	Anterolateral(right) to anus, no episotomy site
Sayfan et al(1991) ²⁰	Case report	1	Episotomy site
Cheng et al(1991) ²¹	Case reports	2	Episotomy site
	Literature review	66	
이한우 등(1991) ²²	Case reports	2	Episotomy site
이향미 등(1993) ²³	Case report	1	Episotomy site

생은 위의 여러가지 가설의 조합에 의할 것으로 사료된다.

회음부 자궁내막증의 발생 빈도는 아직까지 확실하지 않으나 Paull과 Tedeschi⁶⁾는 13800명 분만에서 15예가 발생하며 0.1%이었으며, 자궁내막소파술을 시행한 2028명의 0.7%이라고 보고하였다. 산과적 혹은 수술적 손상후 자궁내막증의 발생 시기는 저자마다 다르나 대부분 30~40대의 임신가능 연령에 발생하며¹²⁾ 4주에서 16년까지 보고되어 있다^{5,10)}. 증상은 다양하고 회음부 조직 기능의 활성도에 따르는데 월경통, 월경과다증, 성교통, 하복통, 이차성 불임증이 있을 수 있으나 회음절개 부위 낭종성 결절 촉지 및 월경 2~3 일 전부터 크기가 커지고 통증 및 분비물이 있으며 월경이 끝나면 위의 증상이 없어지고 다음 주기에 반복되는 것이 특징이나 간혹 농양을 형성하거나 항문팔약근을 침범할 수도 있다고 한다¹⁷⁾. 위의 소견으로 Gordon 등¹²⁾은 Perianal abscess with/without fistula, thrombosed hemorrhoid, perianal melanoma, sebaceous cyst, hidradenitis suppurativa, dermoid cyst, hematoma, tuberculosis, actinomycosis, basal cell 혹은 squamous cell cancer 등과 감별 진단해야 한다고 하였다. 회음부 자궁내막증의 병리적 진단은 ① stroma, ② glands, ③ hemosiderin pigment 중 2개 이상이 있어야 확진이 가능하며 stroma가 진단에 가장 중요한 구성이라 하였는데 본 예에서도 stroma와 glands를 확인이 관찰할 수 있었다. 그러나 간혹 만성형에서는 혈액의 염증자극 효과에 의해 fibroblastic proliferation으로 인하여 dense fibrous nodule로 발전하여 진단에 어려움이 있는 경우도 있다 하겠다^{2,12)}.

치료 및 예후를 살펴보면 완전 절제의 경우에는 대부분 재발없이 치유된다고 하나 불완전 절제경우^{5,6,11,21)}는 재발예가 보고되어 있으며 재발은 대부분 1년 이내에 나타난다고 한다¹⁴⁾. 그러나 저자들은 본 예와 같이 국소마취하에서의 절제는 불완전 절제의 가능성성이 높아 재발 위험이 크므로 충분한 마취하에서의 절제가 필요하리라 생각된다. 또한 본 예처럼 항문팔약근에 병변이 가깝거나 일부를 침범할 수 있으므로 절제후 항문팔약근의 plastic repair나 reinforcement가 필요할 수도 있다고 한다¹⁸⁾. 간혹 불완전 절제경우나 small multiple lesion인 경우는 호르몬 요법이 이

용되기도 하는데 danazol이 가장 널리 쓰이며 최근에는 GnTH analog, progesterone receptor antagonist 등도 연구 대상이나²⁷⁾ 수술적 완전절제를 대신 할 수는 없다.

결 론

저자는 항문팔약근의 일부를 침범한 재발된 회음절개부위 자궁내막증 1예를 완전 절제후 팔약근을 보강한 경험을 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) von rokitanski C 1860, as quoted in Ridley JH: *The histogenesis of endometriosis; A review of facts and fancies. Obstet Gynecol Surv* 73: 1, 1968
- 2) Novak ER, Woodruff JD: *Novak's gynecologic and obstetric pathology with clinical and endocrine relations*, 8th edn, p561, W.B. Saunders, Philadelphia, 1979
- 3) Schickele M, Bull et men: *Soc de Paris* 20: 601, 1923
- 4) Sampson JA: *Perforating hemorrhagic(chocolate) cysts of the ovary: Their importance and especially their relation to pelvic adenomas of endometrial type("adenoma" of uterus, rectovaginal septum, sigmoid etc.). Arch Surg* 3: 245, 1921
- 5) Prince LN, Abrams J: *Endometriosis of the perineum: Review of the literature and case report. Am J Obstet Gynecol* 73: 890, 1957
- 6) Trampuz V: *Endometriosis of the perineum; A report of 5 new cases. Am J Obstet Gynecol* 84: 1522, 1962
- 7) McGivny J, Mazuji MK: *Endometriosis of episiotomy scar: Case report. Am Surg* 32: 469, 1966
- 8) Minvielle L, de la Cruz JU: *Endometriosis of the anal canal: Presentation of case. Dis Colon Rectum* 11: 32, 1968
- 9) Ramsey WH: *Endometrioma involving the perianal tissues: Report of a case. Dis Colon Rectum* 14: 366, 1972
- 10) Paull T, Tedeschi LG: *Perineal endometriosis at the site of episiotomy scar. Obstet Gynecol* 40: 28, 1972
- 11) Swerdlow DB: *Endometrioma masquerading as an anorectal abscess: Report of a case. Dis Colon Rec-*

- tum 18: 620, 1975
- 12) Gordon PH, Schottler JL, Balcose EG, et al: *Peri-anal endometrioma: Report of five cases. Dis Colon Rectum* 19: 260, 1976
- 13) Sully L: *Endometrioma of the perineum associated with episiotomy scars. Scott Med J* 22: 307, 1977
- 14) Hambrick E, Abcarian H, Smith D: *Perineal endometrioma in episiotomy incisions: clinical features and management. Dis Colon Rectum* 22: 550, 1979
- 15) Wittich AC: *Endometriosis in an episiotomy scar: Review of the literature and report of case. J AOA* 82: 22, 1982
- 16) 곽주연: 회음부에 발생한 자궁내막증 1예. 대한산부회지 29: 127, 1986
- 17) Salamalekis E, Vasiliadis Tx, Kairi P, et al: *Perineal endometriosis. Int J Gynecol Obstet* 31: 75, 1990
- 18) Pollack R, Gordon PH, Ferenczy A, et al: *Perineal endometriosis: A case report. J Reprod Med* 35: 109, 1990
- 19) Sayfan J, Benosh L, Segal M, et al: *Endometriosis in episiotomy scar with anal sphincter involvement. Dis Colon Rectum* 34: 713, 1991
- 20) Cheng DL, Heller DS, Oh C: *Endometriosis of the perineum: Report of two cases and a review of literature. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 42: 81, 1991
- 21) 이한우, 신재철, 김용국 등: 회음절개 부위에 발생한 자궁내막증 2예. 대한산부회지 34: 139, 1991
- 22) 이향미, 김미경, 최도영 등: 회음절개부위에 발생한 자궁내막증 1예. 대한산부회지 36: 260, 1993
- 23) Javert CT: *Spread of benign and malignant endometrium in the lymphatic system with note on coexisting vascular involvement. Am J Obstet Gynecol* 64: 780, 1952
- 24) Novak ER, Hoge AF: *Endometriosis of the lower genital tract. Obstet Gynecol* 12: 687, 1958
- 25) Simpson JL, Malinak LR, Butran VC Jr: *Heritable aspects of endometriosis. Am J Obstet Gynecol* 137: 327, 1980
- 26) Dmowski WP, Steele RW, Baker GF: *Deficient cellular immunity in endometriosis. Am J Obstet Gynecol* 141: 377, 1981
- 27) Meldrum DR, Chang RT, Lu J, et al: "Medical oophorectomy" using a long acting GnRH agonist: A possible new approach to the treatment of endometriosis. *J Clin Endocrinol Metab* 54: 1081, 1982