

## 부신종양의 자연출혈 2예

포천중문의대 분당차병원 비뇨기과학교실, <sup>1</sup>병리학교실

김제원 · 박종호 · 박동수 · 이용희<sup>1</sup> · 이영태

### Two Cases of Spontaneous Hemorrhage from Adrenal Tumor

Je Won Kim, M.D., Jong Ho Park, M.D., Dong Soo Park, M.D., Yong Hee Lee, M.D.<sup>1</sup> and Young Tae Lee, M.D.

Spontaneous hemorrhage from adrenal tumor is most commonly due to rupture of a pheochromocytoma and sometimes due to adrenocortical carcinoma or adrenal cyst. We report 2 cases of spontaneous retroperitoneal hemorrhage that resulted from adrenal tumor, one is an adrenocortical carcinoma and the other an adrenal cyst. They showed atypical imaging features on ultrasonography or computerized tomography. (J Korean Surg Soc 2001;60:565-569)

**Key Words:** Adrenal tumor, Spontaneous hemorrhage  
**중심 단어:** 부신종양, 자발성 출혈

Departments of Urology and <sup>1</sup>Pathology, Pundang CHA Hospital, Pochon CHA University College of Medicine, Sungnam, Korea

### 서론

부신에서 발생한 각종의 종양은 초음파와 전산화단층촬영기, 자기공명영상기의 보급확산으로 그 발견빈도가 증가하고 있다. 부신종양에서 출혈이 되었을 때 어떤 기저질환에 의한 것인지 감별하기가 쉽지 않고, 부신의 기능적 상태를 밝히는데 시간이 많이 소요되기 때문에 발견 당시 진단이 명확치 않거나 급성출혈이 조절되지 않는다면 응급수술을 고려해야 한다.

부신피질암종은 매우 드문 질환으로서 5년 생존율이 약 35%로서 예후가 좋지 않다. 복부초음파와 전산화단층촬영의 증가로 인해 우연히 발견되는 경우가 많고, 치료의

원칙은 종양의 완전절제로서 신장이나 비장 등의 주변 조직을 침범시에는 광범위종양절제술을 시행해야 한다. 부신낭종은 주로 일측성이며, 우연히 발견되는 경우가 많다. 부신낭종중 내피성 또는 림프관종성 낭종이 전체의 45%를 차지하며, 가성낭종이 약 35%를 차지한다. 저자들은 좌측복부동통과 우측 상복부동통을 주소로 내원한 환자에서 초음파검사와 전산화단층촬영을 시행하여 발견된 후복막강내 출혈로 응급수술을 시행하여 그 원인이 부신피질암종과 부신낭종으로 진단되었던 경험을 문헌고찰과 함께 보고한다.

### 증례

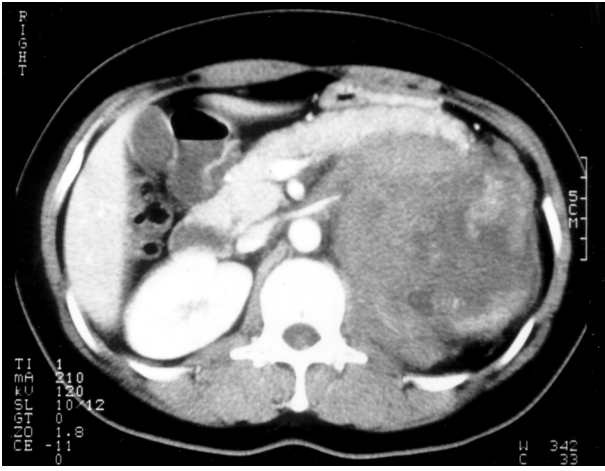
#### 증례 1.

33세 여자환자가 좌측 측복부동통을 주소로 응급실로 내원하였다. 내원 전날 누워 있던 환자의 몸 위로 여동생이 주저앉은 후부터 위의 증상이 발생하였으며, 내원 당시 오심과 구토증세를 동반한 것 이외에는 특별한 증상을 호소하지 않았다. 환자는 기혼으로서 5회의 임신 및 3회의 사산의 분만력이 있었으며, 6년전 포상기태로 화학요법을 실시한 과거력이 있었다. 직업은 주부이며 가족력에서 특이사항은 없었다. 신체검사에서 좌측 상복부에 압통을 호소하였으며, 좌측에 늑골척추간 압통이 있었다. 내원 당시 전신상태는 양호하였고 맥박, 호흡수 및 체온은 정상이었으며, 혈압은 140/80 mmHg이었다. 일반혈액검사에서 혈색소 10.7 mg/dl, 혈색치는 30.8%이었고, 백혈구 17,300/mm<sup>3</sup>으로 증가하였다. 요검사에서 백혈구와 적혈구가 고배율당 1~4개 검출되었고 요당이 4+로 높게 검출되었다. BUN/Cr은 15.5/0.5 mg/dl로 정상이었고, AST와 혈당이 59 U/L, 188 mg/dl로 증가된 소견 이외에 다른 검사실소견은 모두 정상이었다. 복부 전산화단층촬영에서 양측신장은 정상적으로 조영되었으나, 좌측 후복막강에 약 15×10×15 cm 크기의 부분적으로 저밀도인 종물이 좌측신장을 위에서 아래로 압박하고 있었다(Fig. 1). 경정맥요로조영술에서 양측 신배와 요관은 정상적으로 관찰되었다.

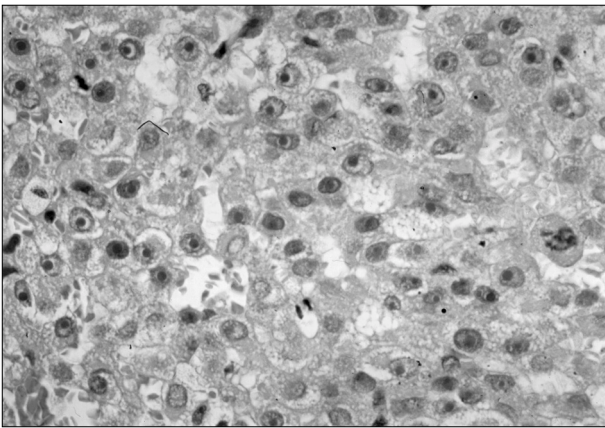
좌측 부신종양의 파열 의심 하에 전방늑골하경복막절개로 시험적 개복술을 시행하였다. 상후복막이 출혈로 착색되어 있었고 심하게 돌출되어 있었으며, 좌측 부신부위

책임저자 : 이영태, 경기도 성남시 분당구 야탑동 351  
☎ 463-712, 포천중문의대 분당차병원 비뇨기과  
Tel: 031-780-5350, Fax: 031-780-5323  
E-mail: ytleemd@cha.ac.kr

접수일 : 2001년 2월 2일, 게재승인일 : 2001년 5월 2일



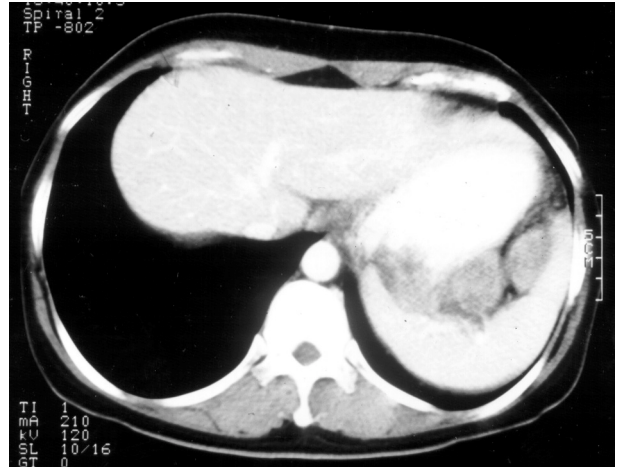
**Fig. 1.** CT scan shows 12×10 cm sized huge mass in the left suprarenal area. The mass shows heterogenous low attenuation and intermediate density solid portion is noted in the periphery. Pancreatic body and tail is anteriorly displaced by the mass.



**Fig. 2.** Microphotograph shows the tumor cells have hyperchromic, pleomorphic nucleus and partly granular cytoplasm with atypical mitosis (×400, H&E).

에 경계가 불분명한 밀짚 빛깔의 종물이 있었다. 이 종물은 췌장체부 및 말단과 좌측 신장맥, 비장, 장관 등의 주변조직과 유착되어 있었다. 종물의 내부에 괴사성, 출혈성 조직이 있었으며 종물의 크기가 매우 큰 것으로 보아 악성종양이 의심되었다. 종물에서 시행한 frozen section에서 부신에 발생한 악성종양이 의심되었고 종양이 이미 파열되어 주변으로 누출되어 있었으므로 육안으로 확인되는 모든 병소를 제거한 뒤 종물을 적출하였다. 주변조직의 frozen section은 시행하지 않았다.

적출된 종물은 무게가 395 gm이었고, 10×10 cm 크기로 내부에 다발성의 출혈성, 괴사성 조직이 관찰되었다. 조직검사에서 종양세포들은 세포질이 일부에서는 과립상



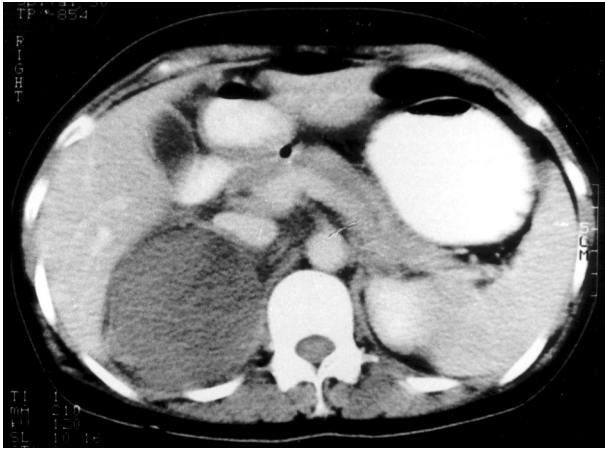
**Fig. 3.** CT scan shows 3 cm to 4.7 cm sized multiple heterogenous low attenuating masses in the splenic hilar area.

혹은 투명하게 보이고, 종양세포핵은 과염색상으로 크고 뚜렷한 핵소체를 보였으며 비정형의 유사분열도 자주 관찰되어 부신피질암증으로 진단되었다(Fig. 2).

환자는 술 후 일반혈액검사서서 혈액소 수치가 8.4 mg/dl로 감소하여 수혈을 시행한 것 외에는 특별한 합병증없이 회복되었으며, 술 후 10일째 퇴원하였다. 환자는 퇴원 후 etoposide 164 mg, cisplatin 114 mg으로 화학요법을 2회 실시하고 전신쇠약으로 중단하였다. 술 후 한달 뒤부터 Mitotane 500 mg을 일일 3회 복용하였으며 약물의 부작용으로 두통과 식욕감퇴, 오심, 구토증세를 호소하였다. 술 후 3개월에 시행한 복부초음파검사서 좌측 신상부와 비장문부에 다발성의 저반향 결절이 관찰되어 시행한 복부 전산화 단층촬영에서 췌장말단과 췌장주변 지방조직, 비장문부에 종양의 재발이 관찰되었다(Fig. 3). 그후 타 병원에서 방사선치료와 항암치료를 병행하였으나 6개월 뒤에 사망하였다.

**증 례 2.**

41세 여자환자가 내원일 새벽부터 발생한 우측 상복부 동통을 주소로 응급실로 내원하였다. 환자는 내원 2주전부터 두통이 있었으며, 열감과 오심, 전신피로감, 약간의 호흡곤란, 그리고 우측 배부통을 호소하고 있었다. 과거력에서 약 20년 전 폐결핵을 앓은 것 이외에는 특이사항은 없었다. 체온은 정상이었으며 신체검사서서 급성병색을 보이고 있었고, 우측 상복부와 우측 늑골척추간 압통이 관찰되었으며, 머피씨 증후가 양성이었다. 신체증후는 정상이었으며, 전혈검사서서 혈액소 11.9 mg/dl, 혈액치는 35.9%, 백혈구 9,700/mm<sup>3</sup>이었고, 소변검사서서 적혈구가 고배출당 1~4개 검출된 것 이외에는 다른 검사실 소견은 정상이었다. 환자는 급성담낭염이 의심되어 소화기내과로



**Fig. 4.** About 7×7×8 cm sized large round mass is noted in the right posterior subhepatic space. The mass shows heterogeneous high attenuation and thin peripheral enhancing rim.

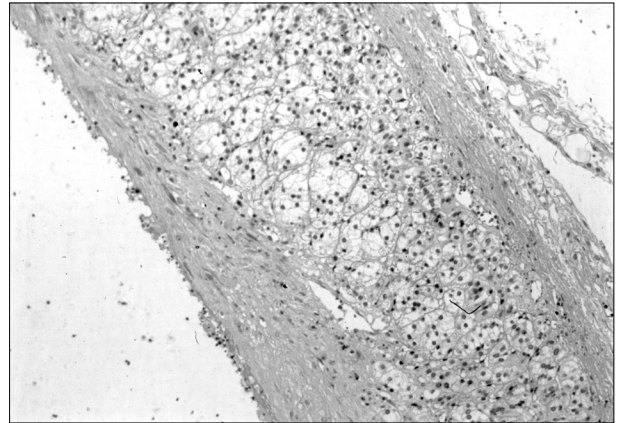
입원하였다. 입원 다음날 시행한 전혈검사서 혈색소 수치 8.6 mg/dl, 혈색치는 26.8%로 감소했으며, 복부초음파 검사에서 우측 신상부에 출혈을 동반한 거대 종물이 관찰되었다. 복부전산화 단층촬영에서는 약 7×7×8 cm 크기의 출혈성 종물이 우측 신상부에서 관찰되었고, 우측 신 주변에서 혈종이 관찰되었다(Fig. 4).

우측 부신종양으로부터의 급성출혈이 의심되어 응급 개복술을 시행하였다. 우측 후복막강에서 부신으로부터 유래한 성인 주먹 크기의 혈종이 관찰되었고, 이 혈종은 하대정맥의 후면과 유착이 심하였다. 복강내 장기와 우측 신장은 정상이었다. 주변조직으로부터 혈종을 분리한 뒤 적출하였다.

조직검사에서 정상부신피질조직과 함께 혈액성분이 함유된 섬유화막이 관찰되었고, 동시에 내피성 조직이 관찰되어 우측 부신에 병발한 가성낭종과 내피성낭종으로 판명되었다(Fig. 5). 환자는 수술 후 7일째 별다른 합병증이 퇴원하였고, 3개월 뒤 추적 관찰한 결과 특이한 이상소견은 관찰되지 않았다.

**고 찰**

부신출혈은 대부분 신생아기에 발생하는데 태생말기에 부신피질은 퇴화되기 시작하고 신생아 때에도 부신피질은 가장 바깥층을 제외한 다른 피질은 계속해서 퇴화가 일어나지만 출생시 타 장기에 비해 부신이 상대적으로 크다.(1,2) 신생아 부신출혈의 원인은 아직 명백하게 밝혀지지 않는으나 부신이 상대적으로 크고 풍부한 혈액 공급을 받고 있기 때문에 분만손상, 난산, 심폐소생술후, 거대아 분만이나 패혈증, 저프로트롬빈혈증, 혈소판감소증 등의 출혈성질환에 의해 발생한다고 알려져 있다.(1,2) 부신



**Fig. 5.** The cyst wall was composed of fibrous tissue, partly containing the adrenal cortex and was lined by flattened endothelial cells (×100, H&E).

출혈은 부검결과 1% 미만에서 보고되며, 좌측에 비해 우측에서 3~4배 정도 호발하는데 이는 우측 부신이 간과 척추사이에서 압박을 받거나 짧은 우측 부신정맥이 하대정맥으로 직접 유입되어 정맥압이 높기 때문이라고 생각된다.(1,2) 소량의 부신출혈이 있는 경우에는 특이한 임상 증상이 없으나 다량의 부신출혈이 있는 경우에는 복부에 종물이 축적되고, 현미경적 혈뇨, 빈혈, 무기력감, 요로감염, 패혈증, 쇼크 등의 증상이 있으며, 신정맥혈전증이 동반된 경우에는 육안적 혈뇨도 나타날 수 있다.(3)

성인에서 발생한 부신출혈의 원인으로는 외상이나 심한 육체적 스트레스, 패혈증 등으로 인한 부신피질자극에 의해서 과량의 ACTH가 분비되며 발생할 수 있다.(4) 또한 임신의 독혈증으로 인한 모세혈관의 손상, 혈전성정맥염 등으로 인해 부신정맥의 혈전증, 출혈을 유발해 발생할 수도 있으며 그 외 출혈성 질환, 헤파린, 와파린 등의 항응고제 투여나 저혈압, 영양분결핍, 부신에 발생하거나 전이된 종양에 의해서도 부신출혈이 발생한다고 알려져 있다.(4)

과거에는 수술전 부신종양의 파열에 의한 후복막강내로의 출혈을 진단하기는 매우 어려운 일이었으나, 최근 전산화단층촬영기와 자기공명영상기의 보급으로 진단사례가 늘고 있다. 부신 출혈의 진단은 전산화단층촬영에서는 조영이 증가되지 않는 종물로, 자기공명영상술에서는 T1-강조영상에서 저농도, T2-image에서 고농도 음영으로 진단된다. 치료는 대부분의 경우에서 적절한 수액요법과 혈액보충 및 스테로이드 복용 등의 대증요법을 시행하지만, 진단이 명확치 않거나 급성출혈이 조절되지 않는다면 수술적 요법을 고려해야 한다.(3)

부신피질암종은 원발성과 재발성 모두 치료의 선택은 수술이다. 가장 중요한 예후인자는 전이의 유무로서 전이가 가장 잘 되는 장기로는 폐, 간, 임파절을 들 수 있

다.(5,6) 신장, 비장 및 주변 임파절로의 전이시 광범위중양절제술을 시행한다 해도 5년 생존율이 50% 미만이다.(6) 이런 나쁜 예후로 인해 효과적인 수술 후 항암치료가 필요하게 되었다. 아직 논란의 여지가 있지만, Khorram 등(7)은 수술 후 Mitotane 치료를 병행하여 5년 생존율을 58%라고 보고했으며, French multicenter study에 따르면 수술후의 Mitotane 복용은 환자의 생존율을 의미있게 증가시켰다고 보고하고 있다.(8) 하지만 Haak 등(9)은 96명의 환자중 수술후 62명에서 Mitotane을 복용한 결과 치료결과에 영향을 미치지 않았다고 보고했다. 최근에는 진행된 부신 피질암종 환자에서 MDR-1/P glycoprotein에 의한 약물저항성이 Mitotane에 의해 해소될 수 있다는 것이 밝혀짐에 따라 cisplatin과의 병합요법을 시행하여 좋은 결과를 보고하고 있다.(10) Mitotane의 용량은 고용량요법(6~10 g/d)의 소화기계, 중추신경계 부작용으로 인해 저용량요법(2 g/d)이 추천되고 있다. 부신피질암종의 진단과 환자의 추적관찰에 있어서 종양의 재발을 조기에 알 수 있는 방법으로는 소변내의 스테로이드양을 측정하는 것이다.(11) 방사선 검사에서 정상소견을 보인다 해도 측정치의 변화가 있다면 종양의 재발을 의심해 보아야 한다. 증례 1의 경우 주변장기로의 침범이 관찰되지 않았고 종양이 부신에 국한되어 있었으므로 부신종양과 함께 혈중 및 피사조직을 완전적출 하였지만, 수술 후 추적관찰에서 소변내 스테로이드의 양이 유의하게 높게 측정되었으며, 방사선검사서 주변조직에 종양의 재발이 관찰되었다. 따라서 출혈이 동반된 부신피질암종의 경우 육안적으로 주변장기로의 침범이 확인되지 않아도 첫 수술시 부신종양을 포함한 주변장기의 광범위절제술에 대한 고려가 필요하다고 할 수 있겠다.

부신 가성낭종은 부신에 대한 심한 압박에 의한 부신내 출혈로부터 발생한다고 생각된다.(12) 대부분의 부신 가성낭종은 전산화 단층촬영소견에서 크기가 작고, 일측성이며 동일한 농도의 단순 낭성종물로 관찰되지만, 드물게 내부에 석회화나 고형물질이 관찰되어 부신암과의 감별 진단에 어려움이 따르기도 한다.(13) 자기공명영상술에서는 T1-강조영상에서는 저농도, T2-강조영상에서 고농도로 관찰된다. 조직학적으로는 내피성 혹은 외피성 조직이 없는 섬유화막으로 구성되어 있으며, 종종 주변에 곡선의 석회화를 보이기도 한다.(12) 대부분의 경우에 경미한 복통이외에는 특별한 증상을 유발하지 않지만, 드물게 고혈압, 감염, 후복막강내 출혈을 유발할 수 있다. 부신낭종의 치료는 낭종의 위치와 성질, 그리고 증상발현 유무에 따라 달라질 수 있다. 과거에는 진단방법의 어려움으로 수술하는 경우가 많았지만, 최근에는 경피적 낭종천자를 시행하여, cholesterol이나 cortisol의 수치가 증가한 것이 확인되면 부신낭종으로 진단하는 사례가 늘고 있다.(14) 그러나 증상이 없고 전산화단층촬영에서 단순 부신낭종으로

확인되면, 수술이나 낭종천자없이 간헐적으로 초음파를 시행하며 추적관찰 할 수 있다.(15) 위 증례 2에서는 급성 출혈이 조절되지 않았으며, 진단이 명확치 않았기 때문에 응급개복술 및 부신낭종제거술이 필요하였다.

위의 두 증례에서 복통 혹은 측복부통을 주소로 내원한 환자에서 초음파검사와 전산화단층촬영 시행결과 발견된 후복막강출혈의 원인이 모두 부신종양에 의한 것으로서, 이와 유사한 임상증상 및 방사선 소견을 보이는 환자에서 수술 전에 cortisol, aldosterone, dihydroepiandrosterone (DHEA) 등의 호르몬 수치측정을 위한 채혈 및 채뇨는 매우 중요하다. 증례 1의 경우 수술 전에 시행한 검사실 소견에서 혈당치가 상승하였고 요당이 검출되어 기능성 부신종양이 의심되었지만, 응급수술을 요하였기에 수술 전에 종양의 기능적인 상태를 평가할 수는 없었다. 하지만 수술후 부신의 호르몬 분비기능에 대한 검사 및 평가를 위해 수술 전에 호르몬 수치 측정을 위한 채혈 및 채뇨는 반드시 필요하다고 할 수 있겠다. 더불어 임상증상과 방사선검사서 위의 증례와 유사한 소견을 보일 때, 부신종양으로 인해 자연 발생한 출혈의 가능성을 명심해야할 것이다.

## REFERENCES

- Gotoh T, Adachi Y, Nounaka O, Mori T, Koyanagi T. Adrenal hemorrhage in the newborn with evidence of bleeding in utero. *J Urol* 1989;141:1145-7.
- Smith JA, Middleton RG. Neonatal adrenal hemorrhage. *J Urol* 1979;122:674-7.
- John R, Woodard RG. Adrenal hemorrhage. In: Walsh PC, Retik AB, Stamey TA, Vaughan ED Tr, editors. *Campbell's Urology*. 6th ed. Philadelphia; Saunders, 1992;1610-3.
- Xarli VP, Steele AA, Davis PJ, Buescher ES, Rios CN, Garciaunuel R. Adrenal hemorrhage in the adult. *Medicine* 1978; 57:211-21.
- Richie JP, Gittes RF. Carcinoma of the adrenal cortex. *Cancer* 1980;45:1957-64.
- Pommier RF, Brennan MF. An eleven year experience with adrenocortical carcinoma. *Surgery* 1992;112:963-70.
- Khorram-Manesh A, Ahlman H, Jansson S, Wangberg B, Nilsson O, Jakobsson CE, et al. Adrenocortical carcinoma: surgery and mitotane for treatment and steroid profiles for follow-up. *World J Surg* 1998;22:605-12.
- Icard P, Chapuis Y, Andreassian B, Bernard A, Proye C. Adrenocortical carcinoma in surgically treated patients: a retrospective study on 156 cases by the French Association of Endocrine Surgery. *Surgery* 1992;112:972-9.
- Haak HR, Hermans J, Van de valde CJ, Lentjes EG, Goslings BM, Fleuren GJ, et al. Optimal treatment of adrenocortical carcinoma with mitotane: results in consecutive series of 96 patients. *Br J Cancer* 1994;69:947-51.

- 10) Doglotti L, Berruti A, Pia A, Paccotti P, Ali A, Angeli A. Cytotoxic chemotherapy for adrenocortical carcinoma. *Minerva Endocrinol* 1995;20:105-9.
  - 11) Minowada S, Kinoshita K, Hara M, Isurugi K, Uchikawa T, Nijima T. Measurement of urinary steroid profile in patients with adrenal tumor as screening method for carcinoma. *Endocrinol Jpn* 1985;32:29-37.
  - 12) Ichiro S, Nobuya N, Toshio F, Kensuke N. Atypical appearance of adrenal pseudocysts. *J Urol* 1994;152:150-2.
  - 13) Schaner EG, Dunnick NR, Doppman JL, Strott CA, Gill JR, Javadpour N. Adrenal cortical tumors with low attenuation coefficients: a pitfall in computed tomography diagnosis. *J Comput Assist Tomogr* 1978;2:11-5.
  - 14) Tung GA, Pfister RC, Papanicolaou N, Yoder IC. Adrenal cysts: imaging and percutaneous aspiration. *Radiology* 1989; 173:107-10.
  - 15) Broadley P, Daneman A, Wesson D, Shandling B, Phillips M. Large adrenal cysts in teenage girls: diagnosis and management. *Pediatr Radiol* 1997;27:550-2.
-