

성인에서의 직장후방종양의 임상적 고찰: 증례 보고 및 문헌 고찰

연세대학교 의과대학 외과학교실

권혜연 · 허혁 · 민병소 · 김남규 · 손승국 · 조장환

Clinicopathological Features of Retrorectal Tumors in an Adult - A Case Report and Review of the Literatures -

Hye Youn Kwon, M.D., Hyuk Hur, M.D., Byung Soh Min, M.D., Nam Kyu Kim, M.D., Seung Kook Sohn, M.D., Chang Hwan Cho, M.D.

Department of Surgery, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Retrorectal tumors are particularly rare among the adult population, occurring in 1 of 40,000 hospital admissions. Clinical diagnosis is difficult and is often delayed because of vague symptoms. This study aimed to investigate the clinicopathological features of retrorectal tumors. Between January 1999 and March 2005, 10 patients were diagnosed with retrorectal tumors at the Department of Surgery, Yonsei University Medical Center, and their medical records were reviewed. We analyzed chief complaints, imaging studies, surgical approaches and pathologic examinations. Out of 10 patients, 8 were female and 2 were male. The mean age was 42.8 years. Four patients had no symptoms. Perianal and abdominal pain were the most common presentations. CT and MRI were the most frequently performed imaging studies. Surgery was performed in 9 patients. Postoperative pathologic diagnosis was possible in 9 patients. An epidermal cyst was the most common tumor (4 patients); others included a mature teratoma, an adenocarcinoma from a tail gut cyst, a duplication cyst, a neurogenic tumor, and a smooth muscle cell tumor. Imaging techniques like CT scans, MRI and TRUS are helpful to determine the size and the extent of a tumor and its relationship to the surrounding anatomical structures for the operative approach. A surgical resection is the standard of treatment and demonstrates good results and a good prognosis. **J Korean Soc Coloproctol 2008;24:292-297**

Keywords: Retrorectal tumor, Epidermal cyst, Mature teratoma, Tail gut cyst, Duplication cyst
직장후방종양, 표피낭종, 성숙 기형종, 미장낭종, 복제 낭종

서론

직장후방종양은 입원 환자 4만 명당 한 명 정도에서 발생하는 비교적 드문 질환으로 1847년 Emmerich에 의해 성인에서 직장후방에 생긴 기형종이 처음으로 보고되었다.¹ 직장후방강은 다양한 발생학적 구조의 발달이 이루어지는 공간이기 때문에 발생학적 잔유물에서 기원하는 양성 또는 악성의 다양한 종양이 발생하게 된다.² 직장후방종양은 대부분 임상양상이 비특이적이고 병변에 대한 수술 전 조직학적 생검이 어렵기 때문에 진단과 치료에 어려운 점이 있다.³ 성인에서의 직장후방종양은 대부분 양성으로 나타나지만, 악성의 요소를 갖고 있거나 악성으로 변할 잠재성을 갖고 있을 수 있기 때문에 모든 직장후방종양은 적극적인 수술적 치료가 필요하다.²

본 연구는 매우 드문 질환인 직장후방종양 10예의 증례를 보고하여 질환에 대한 경험을 공유하고 또, 기존의 문헌을 고찰함으로써 진단 및 치료에 대한 이해를 도모하고자 하였다.

증례

1999년 1월부터 2005년 3월까지 세브란스병원 외과에서 직장후방종양을 진단 및 치료 받은 10명의 환자

접수: 2007년 6월 10일, 승인: 2008년 7월 8일
책임저자: 김남규, 120-752, 서울시 서대문구 신촌동 134
연세대학교 의과대학 신촌세브란스병원 외과
Tel: 02-361-5562, Fax: 02-313-8289
E-mail: namkyuk@yuhs.ac

Received June 10, 2007, Accepted July 8, 2008
Correspondence to: Nam Kyu Kim, Department of Surgery, Yonsei University College of Medicine, Severance Hospital, 134, Shinchon-dong, Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea
Tel: +82-2-361-5562, Fax: +82-2-313-8289
E-mail: namkyuk@yuhs.ac

들을 대상으로 하였고, 환자의 주 증상, 진단 방법, 치료 및 수술방법, 조직병리결과를 의무기록열람을 통해 후향적으로 조사하여 비교 분석하였다.

1) 수술 전 임상적 특징

1999년부터 2005년 3월까지 직장후방종양으로 진단 받은 성인 10명 중 남성이 2예, 여성이 8예로 남녀의 발생비율은 1 : 4였다. 연령 분포는 24세에서 74세까지 이고 환자의 평균연령은 42.8세였다(Table 1). 환자들의 주 증상은 4예에서 특이 증상이 없었고, 2예에서 복부 불편감 및 동통, 2예에서 항문주위 동통 및 부종, 1예에서 수신증을 동반한 좌측 옆구리 동통, 1예에서 대변 직경의 변화 등 배변 습관의 변화가 있었다. 진단을 위한 검사로서 3예에서 자기공명영상을 시행하고, 1예에서는 전산화 단층촬영만 시행하였다. 1예에서 자기공명영상과 전산화 단층촬영, 1예에서는 자기공명영상과 바륨 대장 조영술을 시행하였다. 1예에서는 자기공명영상과 바륨 대장 조영술, 경 직장 초음파를 시

행하였으며, 1예에서는 자기공명영상과 전산화 단층촬영, 경 직장 초음파 세 가지 검사를 시행하였다. 1예에서는 네 가지 검사를 모두 행하였다(Fig. 1).

2) 수술 및 조직병리학적 특징

수술 방법은 경 미추 또는 경 천추 절제가 4예에서 가장 많았고, 1예에서 저위 전방절제술, 1예에서 복회음절제술, 1예에서 복회음절제술과 함께 자궁절제술 및 양측난소절제술, 1예에서 직장절제 및 천골 절제술, 하트만 수술, 인공 항문 조성술을 시행하였으며, 1예에서는 복강 및 천추를 통한 광범위절제술을 시행하였다. 10예 중 2예에서 수술 전 진단적 조직검사 및 수술 후 조직검사를 시행하였고 7예에서 수술 후 조직검사로 조직학적인 확진을 하였다(Fig. 2). 1예에서는 전산화 단층촬영 및 자기공명영상에서 유전종으로 진단되었으나 주위조직과의 유착 및 침습으로 절제 불가능하여 수술적 치료 없이 방사선 치료를 하였기 때문에 조직학적 확진은 되지 않았다.

Table 1. Clinicopathological features of retrorectal tumors in adult

	Age/Sex	Chief complain	Pre-op evaluation	Operation	Mass size (cm)	Pathology
1	74/F	Abdominal discomfort	Rectal MRI	APR* TAH [†] with BSO [‡]	10×9	Epidermal cyst
2	24/F	Abdominal discomfort	Rectal MRI	Excision (trans-abdominal)	8×8	Mature cystic teratoma
3	59/M	Asymptomatic	Rectal CT	Excision (trans-coccygeal)	5×7	Epidermal cyst
4	41/M	Bowel habit change	Rectal CT Rectal MRI TRUS	Excision (trans-coccygeal)	7.5×6	Benign neurogenic tumor
5	40/F	Peri-rectal pain and swelling	Barium enema Rectal CT Rectal MRI TRUS	Hartmann operation	4×3	Adenocarcinoma from tail gut cyst
6	30/F	Flank pain with hydronephrosis	Rectal CT Rectal MRI	No operation	17×10	Not confirmed
7	28/F	Asymptomatic	Ba enema Rectal MRI TRUS	LAR [§]	7.5×6.4	Duplication cyst
8	56/F	Asymptomatic	Rectal MRI TRUS	Excision (trans-coccygeal)	6×4	Epidermal cyst
9	34/F	Asymptomatic	Rectal MRI	Excision (trans-coccygeal)	6×5	Epidermal cyst
10	47/F	Peri-rectal pain and swelling	Barium enema Rectal MRI	APR	20×8	Smooth muscle cell tumor

*APR = abdomino-perineal resection; [†]TAH = trans-abdominal hysterectomy; [‡]BSO = bilateral salpingo-oophorectomy; [§]LAR = low anterior resection.

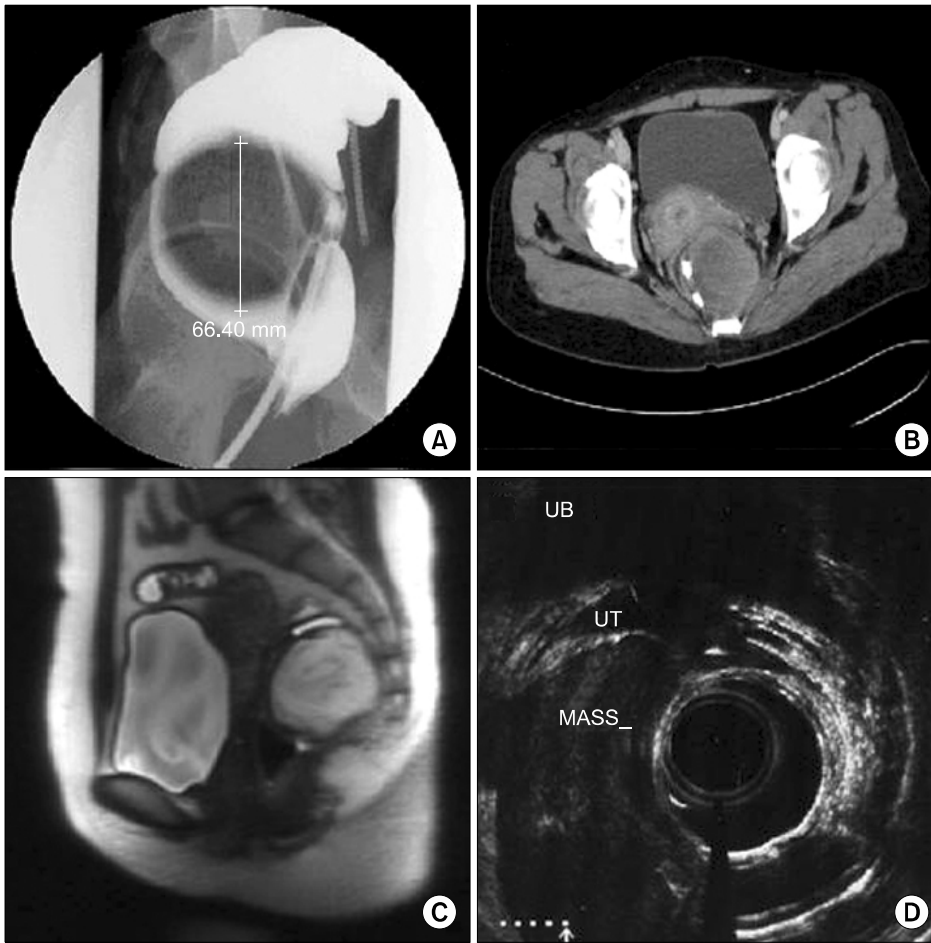


Fig. 1. (A) Barium-enema finding of Retrorectal tumor. Smooth mucosal surface and extrinsic compression are noted. (B) Pelvic CT shows well-marginated and encapsulated retrorectal mass. (C) Rectal MRI shows cystic mass on retrorectal area. (D) Transrectal ultrasonography (TRUS) of extrarectal mass.

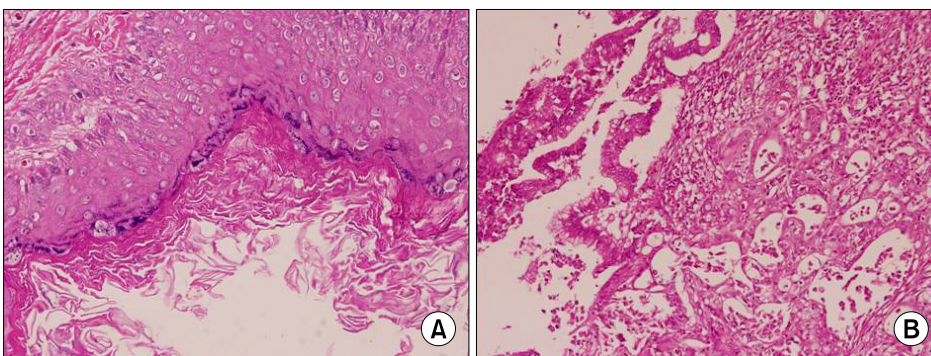


Fig. 2. (A) Epidermal cyst. The cyst is lined by stratified squamous epithelium with a granular layer. The cyst is filled with keratin flakes (H&E stain, ×200). (B) Adenocarcinoma from tail gut cyst. mucin containing cuboidal epithelium. Several cysts contained solid nodule corresponding to the adenocarcinoma (H&E stain, ×100).

병리 조직 검사로 확진된 9예 중 표피 낭종이 4예로 가장 많았으며, 신경원성 종양, 평활근 기원의 종양, 성숙 기형종, 미장의 낭선종 암종, 중복 낭종이 각 1예씩 있었다(Table 1).

3) 수술 후 치료 및 경과

수술 후 사망이나 합병증은 없었고 추적기간은 평균 13.5개월(9~36)이었다. 추적기간 중 악성으로 밝혀진

1예에서만 전이가 발견되었고 나머지 예에서는 재발 및 전이가 없었다. 수술 후 미장의 낭선종 암종으로 진단된 1예에서 수술 후에 방사선 치료를 시행하였으나 6개월 후 좌측 서혜부 림프절 전이가 확인되어 회음부 림프절 절제술 후 항암약물치료를 시행하였다. 영상학적 검사에서 유전종으로 진단된 1예에서는 수술적 치료 없이 경구 Tamoxifen 및 방사선 치료를 시행하였고 치료 후 3년간 추적 관찰 결과 재발되지 않았다.

고 찰

직장후방종양은 입원 환자 4만 명당 한 명 정도로 발생하며 보고마다 차이가 있기는 하지만 3차 의료기관에서 매년 1.4~6.3명 정도가 진단되는 비교적 드문 질환이다.^{3,4,8} 1847년 Emmerich¹에 의해 성인에서의 직장후방 기형종이 처음으로 보고 된 이래 여러 저자들이 직장후방종양에 대한 보고하였으나 극히 드문 종양의 특성으로 인해 대부분의 보고가 증례보고의 수준이다. 1975년 Uhlig와 Johnson⁴이 3차 의료기관뿐 아니라 Portland 지역의 모든 병원을 대상으로 한 연구가 가장 의미 있는 연구로 받아들여지고 있으며 이 연구에서는 매년 평균 2예의 직장후방종양의 유병률을 보였다. 본 연구에서는 6년간 10예로 매년 평균 1.6예가 진단되었다. 국내에서는 1995년 조 등⁹이 26명의 후직장전천골강내 종양 환자와 8명의 점막외직장종양 환자를 대상으로 한 연구가 있다. 26명의 후직장전천골강내 종양 환자 중 선천성이 12예로 가장 많았으며, 간엽원발성 6예, 골성 4예, 신경원성 2예, 염증성 2예로 나타났다. 개별종양별로는 발생성낭종이 7예, 모소동 3예, Ewing육종 3예, 연부조직육종 3예, 신경초종 2예 순으로 많았다. 전체적인 종양의 분포는 본 연구와 유사하였으나 개별종양에서는 약간의 차이를 보였다. 악성종양은 본 연구에서 보다 많아서 양성종양이 17예, 악성종양이 9예였고 양성종양은 16예에서 완전 절제하였고 1예에서 불완전절제 후 방사선치료를 시행하였으며 모든 예에서 재발은 없었다. 악성종양은 9예 중 7예에서 수술을 시행하였고 2예는 종양의 폐전이와 주위장기 침범이 심하여 수술을 시행하지 못하고 항암약물치료와 방사선 치료를 시행하였다. 악성종양 중 불완전절제를 한 후 항암약물치료와 방사선 치료를 한 환자의 경우 재발을 한 환자가 있었고 한 예는 수술을 시행하지 못한 2예와 함께 추적기간 중 사망하였다.

성인에서 직장후방종양의 대부분은 양성이고 여성에서 호발하지만, 악성종양인 경우는 일반적으로 남성에게 더 많다.³ 본 연구에서는 10예 중 8예가 여성, 2예가 남성으로 여성에서 4배가 더 많았고 조직학적으로 확진된 9예 중 악성으로 진단된 1예는 여성에서 진단되었다.

직장후방종양은 일반적으로 선천성(congenital), 염증성(inflammatory), 신경원성(neurogenic), 골성(osseous) 및 기타(miscellaneous) 등 5개의 범주로 나눌 수 있으며, 각각은 조직학적 특성에 따라 세분할 수 있다.⁴ 5개

의 범주 중에서 일반적으로 선천성 종양이 가장 많으며 직장 후방종양의 55~70%를 차지한다.⁴ 본 연구에서는 조직학적으로 확진된 9예 중 7예가 선천성 종양으로 78%를 차지했고 그 중 4예가 표피낭종으로(44%) 가장 많은 부분을 차지했다. 신경원성 종양은 전체 직장후방 질환 중의 10% 정도를 차지하는데,⁶ 본 연구에서는 조직학적으로 확진된 9예 중 1예에서 양성 신경원성 종양으로 진단되었다. 골성 병변 역시 직장후방에 발생할 수 있으며 전체 직장 후방 종양의 5~10%를 차지한다.⁴ 골 기원의 종양은 양성과 악성 모두 가능하지만, 재발률이 높기 때문에 광범위 절제 및 재건을 하여 완전히 절제하는 것이 중요하다.² 본 연구에서는 골성 기원의 종양은 경험하지 못하였다.

대부분의 직장후방종양은 특별한 증상이 없고, 직장수지검사상에서 우연히 발견되는 경우가 많다.⁹ 몇몇 연구에 의하면 직장후방 질환의 약 97%에서 직장수지검사에서 종양이 촉진되어 진단된다.⁶ 증상이 있는 경우에는 하 요부 또는 직장부위 통증이 가장 많다. 본 연구에서는 10예 중 4예(40%)에서 특별한 증상이 없었고 6예에서 복부 불편감 및 동통, 항문주위 동통 및 부종, 수신증을 동반한 좌측 옆구리 동통, 대변 직경의 변화 등 배변 습관의 변화 등의 증상이 있었다.

직장후방종양의 진단은 직장수지검사, 직장경 검사 및 영상학적 진단 방법이 있다. 직장후방종양에 있어서 직장수지 검사는 필수적이다. 90% 이상의 환자에서 직장후방종양을 진단할 수 있을 뿐 아니라 종양의 범위 및 수술적 접근방법을 결정하는 데에도 도움을 줄 수 있다.^{6,7} 직장경 검사는 직장점막 침범 여부를 결정하는 데 중요한 역할을 하며 병변의 범위를 결정하는 데 도움이 된다.² 골반 단순 촬영은 악성을 의심할 수 있는 골 파괴 소견을 확인할 수 있다.² 전산화 단층 촬영은 작은 종양을 진단할 수 있고 양성 종양과 고형 종양을 감별할 수 있을 뿐 아니라 천골 주위조직으로의 침범 여부를 알 수 있다.^{2,10} 자기공명영상은 조직의 명암대비 해상도가 CT에 비해 우수하여 골반내 종양을 판별하는 데 사용이 증가하고 있으며 본 연구에서도 진단적 가치가 가장 높았다. 특히, 자기공명영상은 다평면 영상기능이 있을 뿐 아니라 연조직 해상도가 높기 때문에 직장후방종양의 진단 및 평가에 중요한 역할을 한다. 자기공명영상은 골 및 신경 침범 여부를 결정하는 데 중요한 역할을 하며,⁷ 시상면(sagittal view)에서 종양과 전천골근막(presacral fascia)과의 경계를 알 수 있어 수술적 접근방법을 결정하는 데에도 도움이 된다.^{11,12} 자기공명영상은 특히 척수 영상에 감수성

이 높기 때문에 척수 불융합(spinal dysraphism), 천골 지주막 낭종(sacral arachnoid cyst) 등의 동반된 척수기형을 진단하는 데에 용이하다.¹³ 최근 고형 종양 또는 부분적으로 고형 성분으로 포함하고 있는 종양에서 조직검사를 시행하는 경우 경 직장 초음파가 이용되고 있다.³

수술 전 조직검사에 대해서는 많은 논란이 있어 왔지만 몇몇 연구에 의하면 수술 전 조직 검사는 정상조직에의 종양의 파종(seeding)이 발생할 수 있을 뿐 아니라^{5,6} 낭종성 병변에 감염을 일으켜 수술 후 이환율을 높일 수 있기 때문에 하지 않는 것이 좋다. 따라서 직장후방종양의 수술 전 조직 검사는 절제가 불가능한 경우 보조요법을 위해 조직학적으로 확인이 필요한 경우에 제한적으로 시행되어야 한다.² 본 연구에서는 2예에서 수술 전 조직검사를 시행하였는데, 1예에서는 수술 전 조직검사상 미분화형 암종으로 나왔으나 수술 후 조직검사상에서는 미장의 낭선종 암종으로 판명되어 수술 전 조직검사 결과가 진단에 불충분하였고 1예에서는 섬유화 조직과 일부 소혈관이 나왔으나 수술 후 조직검사상에서는 평활근 기원의 종양으로 판명되어 수술 전 조직검사가 수술 전 직장후방종양의 진단과 평가에 도움이 되지 못하였다.

성인에서 직장후방종양의 치료 원칙은 완전한 수술적 절제이다.² 성인에서의 직장후방종양은 대부분이 양성으로 나타나지만, 악성의 요소를 갖고 있거나 악성으로 변할 잠재성을 갖고 있을 수 있기 때문에 모든 직장후방종양은 적극적인 수술적 치료가 필요하다.² 또한 양성 낭종은 2차 감염의 위험이 있는데 한 번 감염이 되면 주위조직과 유착이 생겨 수술 후 이환율을 높일 뿐 아니라 감염된 낭종은 감염되지 않은 낭종에 비해 재발률이 높으며 수술 후 요실금 등의 합병증이 발생할 확률이 더 많다는 보고가 있기 때문에 양성 낭종이라 하더라도 발견 당시 완전히 수술적으로 절제하는 것이 중요하다.⁶ 직장후방종양의 일반적인 수술 접근 방법은 세 가지가 있다. 전방 절개술(anterior approach)은 천골의 침범이 없으면서 병변의 최하점이 네 번째 천골(S4)보다 상방일 경우에 가능하다.⁷ 전방 절개술은 장골혈관(iliac vessels)과 요로 등 골반구조의 노출이 잘 된다는 장점이 있다.⁷ 후방 절개술(posterior approach)은 네 번째 천골 이하에 있는 작고 양성인 종양에 주로 이용된다.^{14,15} 후방절개술에서는 신경 분포에 대한 시야가 좋다는 장점이 있어 신경의 침범이 있는 경우에도 이용된다.² 종양이 크거나 근위부가 네 번째 천골보다 상부에, 그리고 원위부가 네 번째 천골보

다 하위에 있을 때에는 전방 및 후방 절개술을 결합한 접근방법(abdominosacral approach)을 통해 종양을 절제할 수 있다.⁷ 이 접근방법은 비교적 큰 종양이나 감염된 낭종에서 주위 조직과의 유착이 심한 경우에 유용하다. 전방 절개술을 통해 요로와 직장, 종양자체의 시야를 확보할 수 있을 뿐 아니라 후방 절개술을 통해 신경 뿌리에 대한 시야도 확보할 수 있다는 장점이 있다.²

보조치료법으로 방사선치료와 항암약물치료가 있는데 대부분의 직장후방종양에는 그 효과가 적어서 잘 반응하지 않는 것으로 알려져 있다. 그러나 수술적 절제가 불가능한 경우 질병의 완화목적으로 방사선 치료가 사용될 수 있다. 척삭종의 경우 방사선 치료에 반응을 하지 않는 것으로 알려져 왔으나 고용량의 방사선치료로 수술적인 치료가 불가능하거나 재발한 경우 질병의 완화와 국소조절을 보고한 연구가 있다.¹⁶ 본 연구에서는 수술적 절제가 불가능한 유전종의 경우 방사선치료를 시행하였으며 추적관찰기간 동안 재발은 없었다.

결 론

직장후방종양은 매우 드문 질환으로 여자에서 호발한다. 직장후방종양은 다양한 조직학적 기원을 가진 종양들로 구성되어 있으며 그 증상은 직장암과는 달리 특별한 증상이 없는 경우가 많고, 복부 불편감, 항문주위 동통, 좌측부 동통 등 증상이 비특이적인 경우가 많다. 진단은 직장수지검사 및 직장경 검사 외에 바륨 대장 조영술, 전산화 단층촬영, 자기공명영상, 경직장 초음파 등의 영상학적 진단을 통해 종양의 크기, 종양의 범위, 주위의 주요 장기와의 관계 및 침범 여부 등을 평가할 수 있으며 이를 통해 수술의 범위와 접근 방법을 결정할 수 있다. 치료 원칙은 완전한 수술적 절제이며 이를 통하여 좋은 치료 효과와 예후를 관찰할 수 있었다.

REFERENCES

1. Kidedn F. Teratoid tumors of the sacral region from a clinical standpoint with presentation of pertinent cases. *Deutsch Z Chir* 1899;52:87
2. Hobson KG, Ghaemmaghami V, Roe JP, Goodnight JE, Khatri VP. Tumors of the retrorectal space. *Dis Colon Rectum* 2005;48:1964-74.
3. Wolpert A, Beer-Gabel M, Lifschitz O, Zbar AP. The management of presacral masses in the adult. *Tech*

- Coloproctol 2002;6:43-9.
4. Uhlig BE, Johnson RL. Presacral tumors and cysts in adults. *Dis Colon Rectum* 1975;18:581-9.
5. Cody HS 3rd, Marcove RC, Quan SH. Malignant retrorectal tumors: 28 years' experience at Memorial Sloan-Kettering Cancer Center. *Dis Colon Rectum* 1981;24:501-6.
6. Jao SW, Beart RW Jr, Spencer RJ, Reiman HM, Ilstrup DM. Retrorectal tumors. Mayo Clinic experience, 1960-1979. *Dis Colon Rectum* 1985;28:644-52.
7. Bohm B, Milsom JW, Fazio VW, Lavery IC, Church JM, Oakley JR. Our approach to the management of congenital presacral tumors in adults. *Int J Colorectal Dis* 1993;8:134-8.
8. Freier DT, Stanley JC, Thompson NW. Retrorectal tumors in adults. *Surg Gynecol Obstet* 1971;132:681-6.
9. Cho YP, Kim JC, Kim YT, Lim SH. Retrorectal presacral. *J Korean Soc Coloproctol* 1995;11:165-72.
10. Spencer RJ, Jackman RJ. Surgical management of precoccygeal cysts. *Surg Gynecol Obstet* 1962;115:449-52.
11. Johnson AR, Ros PR, Hjermsstad BM. Tailgut cyst: diagnosis with CT and sonography. *AJR Am J Roentgenol* 1986;147:1309-11.
12. Wetzel LH, Levine E. Pictorial essay. MR imaging of sacral and presacral lesions. *AJR Am J Roentgenol* 1990;154:771-5.
13. Mouloupoulos LA, Karvouni E, Kehagias D, Dimopoulos MA, Gouliamos A, Vlahos L. MR imaging of complex tail-gut cysts. *Clin Radiol* 1999;54:118-22.
14. Lee KS, Gower DJ, McWhorter JM, Albertson DA. The role of MR imaging in the diagnosis and treatment of anterior sacral meningocele. Report of two cases. *J Neurosurg* 1988;69:628-31.
15. Abel ME, Nelson R, Prasad ML, Pearl RK, Orsay CP, Abcarian H. Parasacroccygeal approach for the resection of retrorectal developmental cysts. *Dis Colon Rectum* 1985;28:855-8.
16. Amendola BE, Amendola MA, Oliver E, McClatchey KD. Chordoma: role of radiation therapy. *Radiology* 1986;158:839-43.