

영유아기 치루에 대한 원인적 고찰

전국대학교 의과대학 외과학교실 및 병리학교실*

박용채 · 도성환 · 김상윤* · 이인성*

= Abstract =

A Study of Fistula in Ano in Infants and Early Childhood

— A survey for its etiology —

Ung Chae Park, M.D., Seong Hwan Do, M.D., Sang Yoon Kim, M.D.* and In Seong Lee, M.D.*

Department of General Surgery and Pathology, College of Medicine, Kon Kuk University*

Fistula in Ano in infants and early childhood has certain distinctive feature that differ from those in adults. These include preponderance in the first year of life (more often in the first six months), exclusive male predominance, simple superficial character and straight course of the tracts. The external opening situates antero-laterally or laterally in most infantile fistula. These unique characteristics lead to the need for etiological explanation.

The purpose of this study is to find some clue — histologic evidence — that may play a role in the causation of the fistula or that may explain the pathogenetic mechanism of this disorder.

We carried out a complete clinical investigation on 21 cases of the infantile and early childhood fistula including a monozygotic twin, and found almost similar clinical findings in all cases. Histopathologic study on multiple sections of the wall of fistula tract was performed on 11 cases. Four of the eleven cases disclosed a few small crevices lined by stratified columnar epithelium—a similar histologic structure seen in the lining of anal gland and, in one case, we observed normal looking anal gland in the wall of the fistulous tract.

Base on these findings, we presume that some environmental effect in utero causes the formation of the abnormal anal glands which are vulnerable for gross infection after birth, and these abnormal glands are inclined to distribute in the lateral or anterolateral portion of anal canal. These findings support the congenital etiology.

Key Words: Fistula in ano, Infants, Congenital etiology

서 론

소아에게 발생하는 치루는 성인과 뚜렷하게 다른 특징적인 임상 양상을 보여줌에도 불구하고 그 원인에 대한 자세한 연구가 미흡하여 성인에서와 같이 항문선의 감염에 의한 비특이성 농양에 속발하는 이차적인

질환으로 간주되어 왔다^{1,8,12)}. 그러나 소아 치루중 특히 생후 수개월 내의 영아기에 발생하는 치루는 외구의 위치, 누관의 주행 경로와 깊이, 성별 분포 및 발병의 시기등 임상적 특징이 성인과는 현저하게 달라서 그 이유를 설명하고자 하는 필요성이 생기게 되었다. 1961년 Parks¹⁰⁾가 사산아에 대한 조직학적 탐구를 통해 소아 치루의 원인에 선천적인 소인이 있음을 처

음 제시한 이후 1976년에 Takatsuki¹⁶⁾와 1985년에 Fitzgerald등⁵⁾이 Androgen 관여론을, Shafer등¹⁴⁾이 항문선와(crypt of Morgagni)의 발생학적인 이상을 주장하여 선천적인 원인을 추론한 바 있다.

저자들은 일란성 쌍태아 남아에서 동일한 임상 소견을 보여주는 치루 2예를 포함한 21예의 영유아기 치루에 대한 임상적 특징과 루관의 병리 조직학 소견을 분석함으로써 이의 결과가 치루의 선천적 원인을 시사할 수 있는지를 알고자 본 조사를 시행하였다.

관찰대상 및 방법

1991년 7월 1일부터 1992년 12월 31일까지 1년 6개월간 본원을 방문한 7세이하의 영유아기 치루 환자 21예를 대상으로 하였다. 항문 주위 농양은 있었으나 배농 후 조사 기간까지 치루가 형성되지 않았거나 추적되지 않은 환아는 조사 대상에서 제외하였다. 21예의 환아는 항문에 치루를 제외한 다른 이상 소견 여부

를 확인한 다음 치루 외구의 위치 및 개수를 관찰하였다. 21예의 환아중 17예의 환아에게 전신 마취하에 루관의 경로와 깊이 및 내개구의 위치를 확인한 다음 치루 절제술을 시행하였다. 이중 루관벽이 육안적으로 확인되어 skin hook으로 올린 후 치루관의 두측과 미측 루관벽에서 검체를 얻는 조작이 가능하였던 11예의 환아에게 병리 조직학 검사를 시행하였다. 검체는 4% buffered formalin 용액에 고정하고 파라핀에 포매하였으며 5um 두께로 박편을 얻어 Hematoxylin and Eosin 염색을 시행하고 광학 현미경으로 판독하였다. 일란성 쌍태아 남아 2예는 병리 조직검사와 함께 혈청 Testosterone을 측정하였다.

결 과

1) 환아의 연령 분포 및 임상 소견

항문 주변에서 분비물을 처음 보인 시기나 항문 주변 농양의 배농술을 처음 시행한 때로부터 출생 년 월

Table 1. The information of anal fistula in infants and early childhood

Cases	Sex/Age	Site of E.O.	Number of E.O.	Pathologic specimen
1.	M/15 day	left lateral	1	not taken
2.	M/ 1 month	left lateral	1	not taken
3.	M/ 1 month	bilateral	2	not taken
4.	M/ 1 month	left antero-lateral	1	not taken
5.	M/ 1 month	left antero-lateral	1	not taken
6.	M/ 2 month	left antero-lateral	1	taken
7.	M/ 2 month	left lateral	1	not taken
8.	M/ 2 month	left lateral	1	taken
9.*	M/ 3 month	left lateral	1	taken
10.*	M/ 3 month	left lateral	1	taken
11.	M/ 3 month	right lateral	1	taken
12.	M/ 3 month	left antero-lateral	1	taken
13.	M/ 5 month	left antero-lateral	1	taken
14.	M/ 6 month	bilateral	2	taken
15.	M/ 6 month	bilateral	2	not taken
16.	M/ 7 month	left lateral	1	not taken
17.	M/ 7 month	left antero-lateral	1	not taken
18.	M/10 month	right antero-lateral	1	taken
19.	M/10 month	left lateral	1	taken
20.	M/11 month	left antero-lateral	1	taken
21.	M/15 month	left lateral	1	not taken

*: Monozygotic Twin, M: Male, E.O.: External Opening

일을 감안한 연령을 기준으로한 환자의 연령 분포는 1년 미만의 영아가 20예(95.2%)이며 이중 6개월 이하의 연령에서 15예(71.4%)로 주된 분포를 보였다. 성별 분포는 7세 미만의 대상 환자 21예 모두가 남아 있다. 치루 외공의 위치는 좌측방이 9예 좌 전측방이 7예, 양측방이 3예, 우측방 및 우 전측방이 각 1예로 21예 모든 예에서 측방 혹은 전측방에 위치하였다. 치루 외공의 수는 1개인 경우가 18예(85.7%) 2개인 경우가 3예였으며, 전신 마취하에 확인한 17예 환자의 치루관 주행 경로는 전예에서 단순한 직선형이고 저위형인 치루였다. 내측 개구부는 15예에서 외공과 같은

방향에 개구하였고 2예는 내측 개구부를 찾을 수 없었다(Table 1).

2) 일란성 쌍태아의 임상 소견

단일 태반 및 단일 융모막을 갖는 모체에서 임신 35주에 제왕 절개술로 태어난 일란성 쌍태아이며 산모는 24세로서 조기 파수 외에는 임신중 특이할만한 병력이나 약물 투여력은 없었다. 두 남아 모두 치루의 외공이 항문연으로부터 1cm 거리 3시 방향에 존재하고 같은 방향에 내개구가 열려있는 저위형 치루였으며 항문 및 하부 직장에 동반된 다른 이상 소견은 없었다.

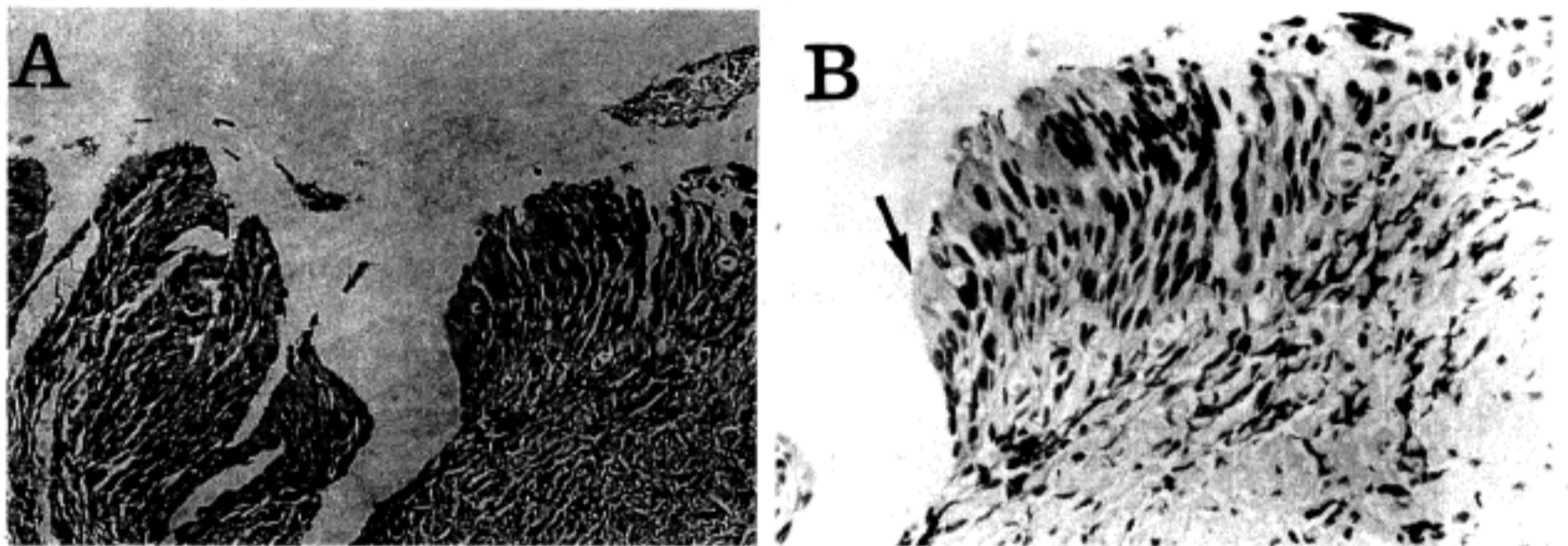


Fig. 1. A) H & E $\times 100$, B) $\times 200$, Photography of the fistula tract wall shows transitional and columnar cell epithelium with cilia (arrow).

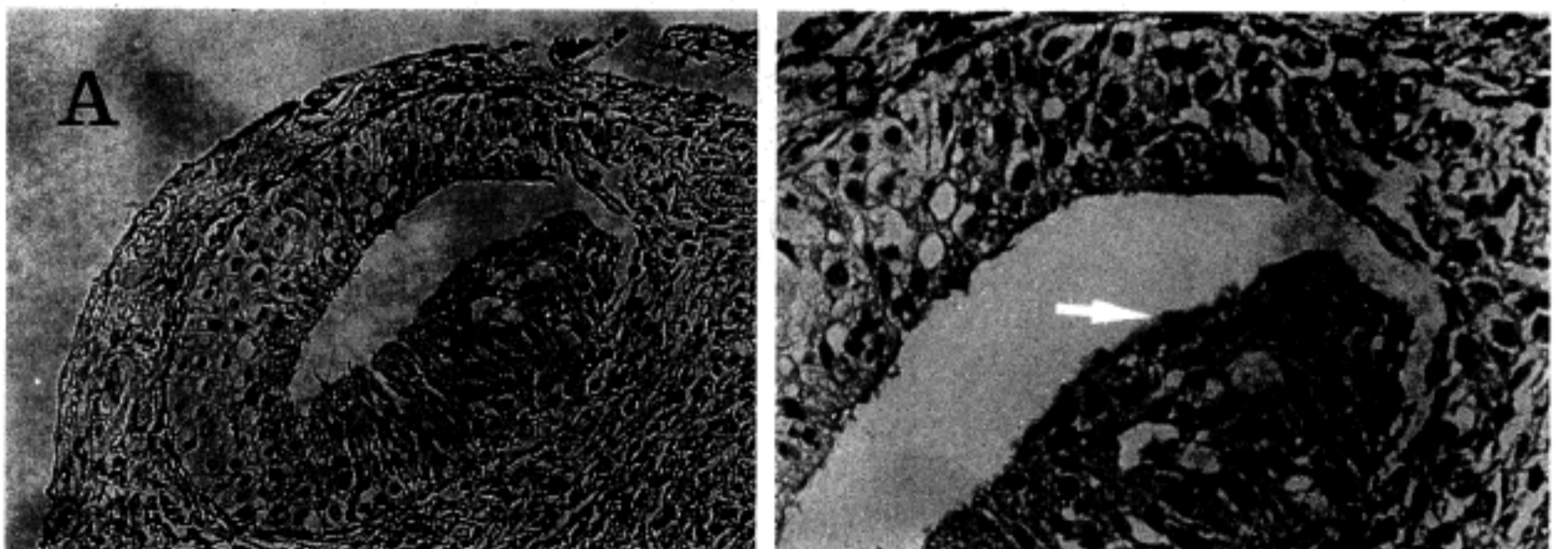


Fig. 2. A) H & E $\times 100$, B) $\times 200$, The anal gland near the fistula tract made up of transitional and innermost tall columnar cell layer with cilia (arrow).

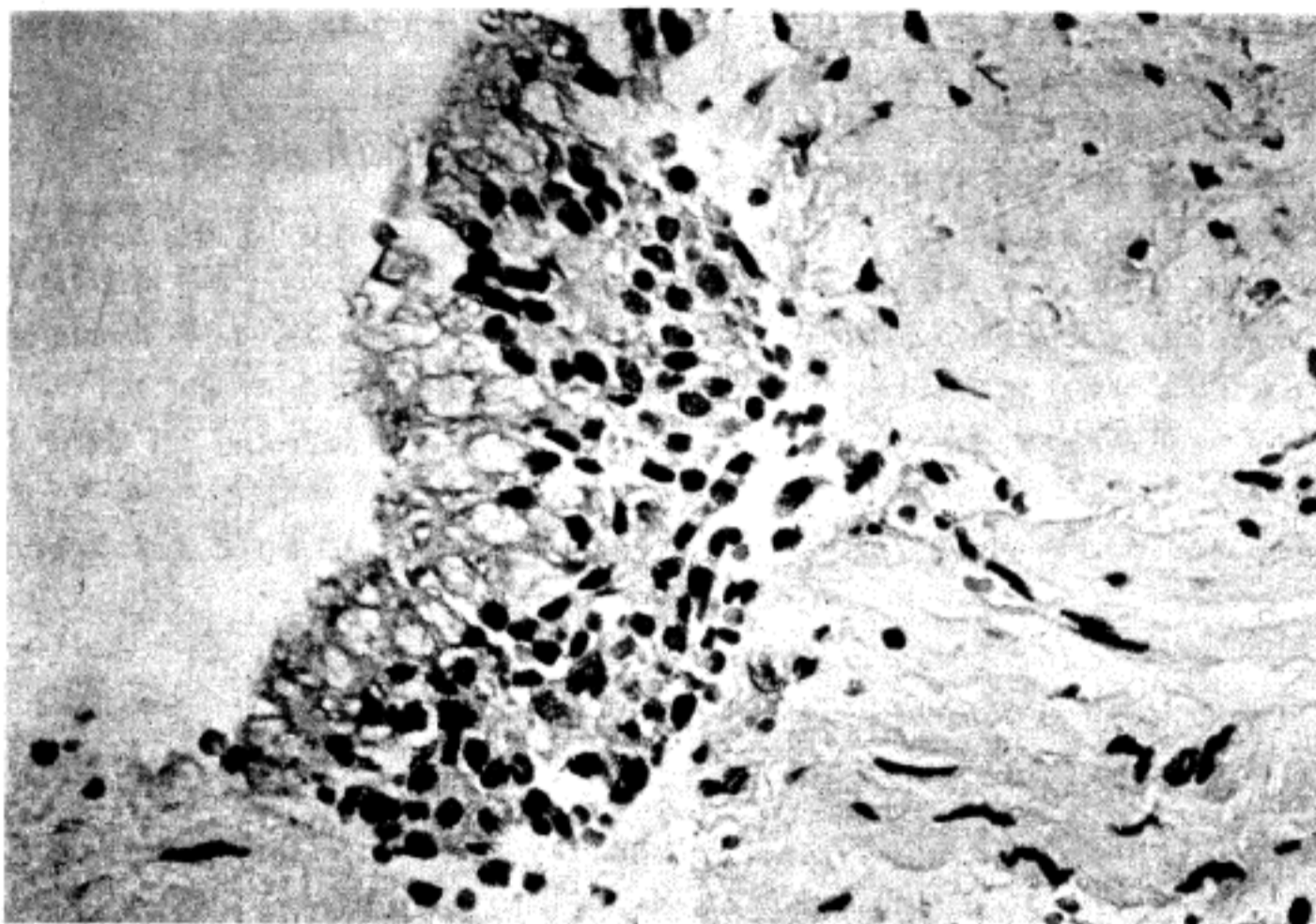


Fig. 3. A layer of superficial columnar cells and several layers of reserve cells in the tract wall.

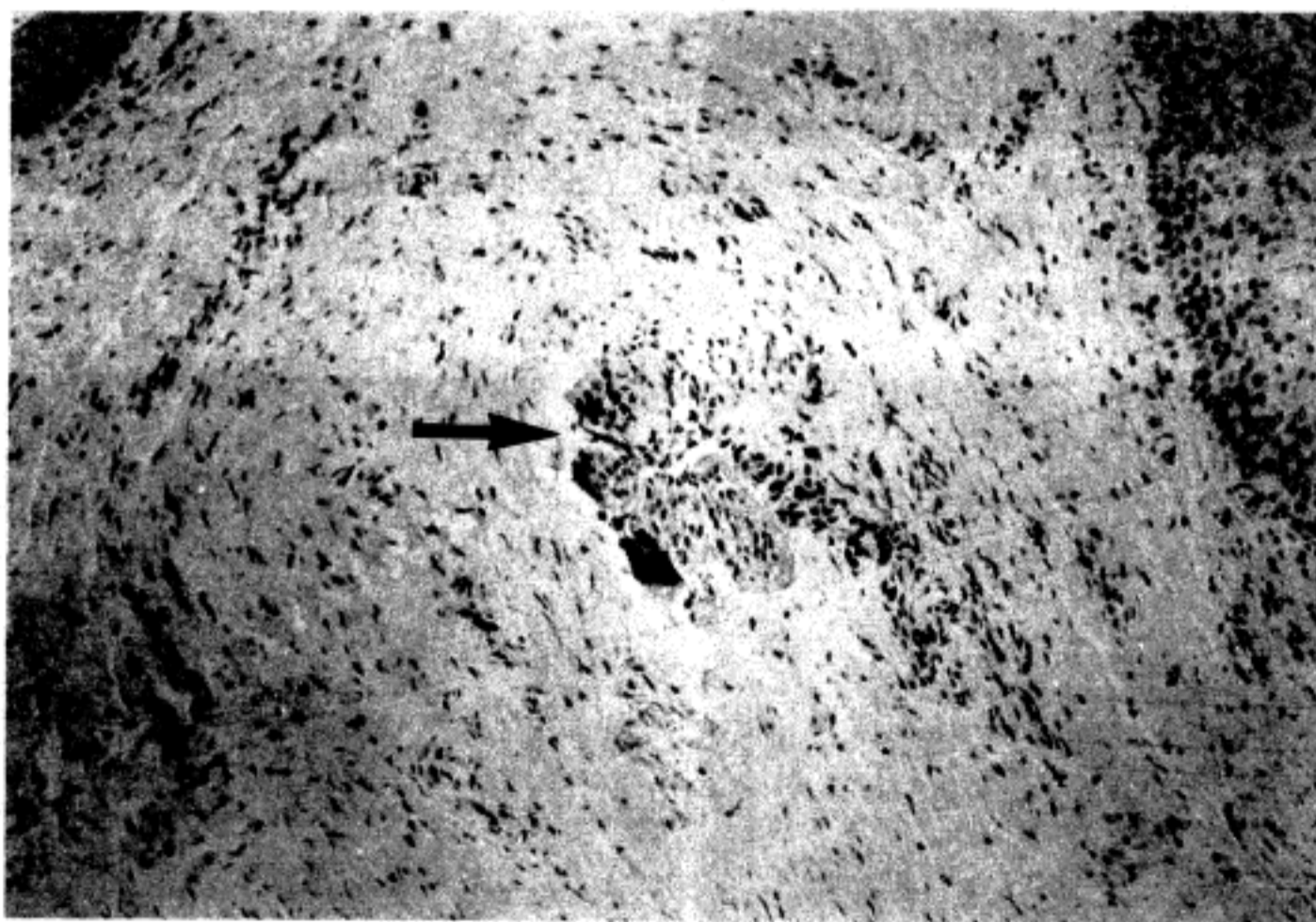


Fig. 4. Photography of the fistula tract wall near the skin shows a group of stratified transitional epithelium (arrow).

두 남아의 입원 당시 혈청 Testosterone은 0.1 ng/ml 이하로서 사춘기 전 정상치인 0.1~0.2 ng/ml 에 비해 증가되지 않았다.

3) 병리 조직학적 소견

검체를 얻을 수 있었던 11예중 일란성 쌍태아를 포함한 6예에서는 상피 세포 없이 결체 조직이나 육아 조직에 비특이성 염증을 동반한 치루벽이 관찰되었고 4예에서는 치루벽의 일부에서 섬모를 갖는 중층의 원주 상피 세포를 관찰할 수 있었다(Fig. 1-A, B). 이중 1예는 치루관 주위에 정상 항문선이 존재하고 있었다(Fig. 2-A, B). 4예중 다른 1예에서는 표층의 원주 상피 아래로 여러층의 예비 세포(reserve cells)로 이루어진 상피 세포를 보여 주었다(Fig. 3). 5개월된 남아 치루 1예에서는 피부층에 가까운 미측루관벽에서 중층의 이행 상피가 집합된 소견이 관찰되었다(Fig. 4).

고 찰

치루의 원인은 1880년 Herrmann과 Desfosses가 항문선의 감염이 치루로 이행됨을 처음 기술하였고¹⁰⁾ 그후 Hill⁷⁾, Morgan⁹⁾, Parks¹⁰⁾ 등의 관찰을 통해 항문선에 대한 자세한 해부 구조 및 주변 조직과의 연관 관계 등이 밝혀지게 되었다. 현재까지는 1956년 Eisenhammer⁴⁾의 항문 근간 기원설(cryptoglandular intermuscular origin)이 보편적으로 받아들여지고 있으며 이는 치루의 치료에 중요한 기여를 하였다. 그러나 성인 치루와 소아 치루는 임상적 특징이 뚜렷이 다르다. 치루 외구의 위치가 성인은 후방에 많으나 소아에서는 양측방 혹은 전방에 많고, 치루관의 주행은 성인에서는 복잡한 경우가 많으나 소아에서는 직선형이며 저위형인 치루가 대부분이다. 소아에서 치루 발현의 초기 연령은 대부분의 경우 1세 이하 특히 6개월 이내에 발현되며 소아 치루의 모든 보고에서 남아에게 현저하게 많다^{1-3, 5, 6, 7, 11-16)}. 본 조사의 연령 및 성별 분포나 임상 소견도 다른 저자들의 보고와 크게 다르지 않다.

따라서 소아 치루의 임상적 양상이 성인에 비해 크게 다른 이유를 설명하고자 하는 필요성이 생기게 되었다. 소아 치루의 공통된 임상 소견들이 보고되기 이전인 1961년에 Parks¹⁰⁾는 사산아를 이용한 조직학적

탐구를 통하여 소아 치루의 원인은 항문선의 농양이 분명하지만 이는 정상적인 항문선에서 감염이 발생하는 것이 아니라 감염이 시작되기 이전에 이미 일부의 항문선은 비정상적인 상태이며, 비정상적인 항문선이란 구체적으로 낭포성 확장(cystic dilatation)이고 이의 원인은 후천적으로 항문 선관이 폐쇄되어 생기거나 혹은 선천적인 이상 때문일 것이라고 추론한 바 있다. 1976년 Takatsuki¹⁶⁾는 소아 치루가 남아에게 유난히 많이 발생하는 이유를 산모 혹은 태아의 androgen 호르몬이 관여하는 것으로 설명하고 있다. 1985년 Fitzgerald등⁵⁾은 그들의 소아 치루 환자들이 대부분 생후 12개월 이내의 남아에게 발생함을 보고하면서 이의 원인은 출생 당시에 이미 비정상적인 항문선이 존재하고 있기 때문인 것으로 보고 있고 비정상적인 항문선의 형성은 자궁 내에서 androgen이 관여한다고 하여 Takatsuki의 의견에 동조하고 있다. 저자의 경우는 일란성 쌍태아 두남아에게 androgen 활성도를 나타내는 혈청 Testosterone을 측정하였는데 0.1 ng/ml 이하로서 특이한 증가 소견은 없었다. 이는 출생전 모체 태반내에서 태어나 산모의 것을 측정 한 것은 아니므로 큰 의의는 없을 것으로 판단된다. 그러나 현실적으로 치루가 발생할 것을 출생 전에 미리 예견할 수는 없기 때문에 치루가 발생할 태아의 androgen을 출생전에 측정하여 이를 증명하는 것은 지극히 어려운 일이다. 1987년 Shafer¹⁴⁾는 선천적 원인에는 의견을 같이 하지만 선천적 원인이란 비정상적으로 깊은 항문선과이며 불규칙적이며 두터운 치상선의 구조 때문에 정상적인 구조와는 달리 쉽게 세균이 침투하여 선와염을 가져오고 종국에는 농양 형성 후에 치루관을 만들게 된다고 하였다. 그는 비정상적인 항문선과의 형성을 발생학적으로 설명하였는데, 치상선은 배설강막의 후방에서 유래되는 외배엽에서 형성되고 이것은 태생기 7주에 후장(hindgut)과 분해 및 융합하게 되며 이때 정상적인 융합은 일정하게 얇은 항문선과를 이루지만 비정상적인 융합을 이루면 불규칙하고 깊은 항문선과를 만들게 되며 이것이 선천적 원인의 근간을 이룬다 하였다. 그러나 비정상적인 항문선과라는 개념은 아주 주관적이어서 현재까지 보고된 임상 연구로는 객관적인 판별 기준을 설정하기 어렵다. 본 조사에서는 항문선과의 깊이나 모양의 규칙성 여부는 판별하지 않았다.

치루의 외공이 좌측방 혹은 전방에 주로 분포하는 이유와 특히 남아에게 많은 이유에 대하여 1988년에 Pople¹³⁾은, 남성의 회음부는 태생기 요도 주름(urethral fold)과 생식 주름(genital fold)의 융합에 의해 형성되는데 비뇨 생식동으로 부터의 이동성 세포(migratory cell)가 장차의 항문 주변 전방에 포착되기 때문이라는 발생학적 원인을 주장하고 있다. 영아기 치루의 무관 주행 방향이 단순한 직선형이며 표재성인 이유는 해부학적인 구조로서 설명될 수 있다. 즉 항문선은 전체의 약 2/3에서 하나 이상의 분지를 항문선으로 내는데 그 방향은 외하방이며 결코 항문판의 위치 보다 상방으로 편지 않는다⁶⁾. 이는 성인에서도 같은 경향을 보이지만 영아에서는 항문 주위 조직의 소엽상 지방층이나 피하 괄약근의 구조가 취약하기 때문에 장골와나 고위 괄약근 쪽으로 염증이 파급되기 이전에, 감염된 농양이 항문 주변의 피하 쪽으로 먼저 배농되기 때문인 것으로 생각된다.

이상과 같이 소아 치루의 원인에 대하여 성인과 특별한 차이를 두지 않고 항문선의 감염이 이차적으로 파급된 것이라는 일반론으로 설명되었던 것이 전술한 보고와 함께 선천적인 원인으로 해석하려는 인식이 대두되고 있다. 본 조사에서 제시한 무관벽의 병리 조직 소견은 섬모를 갖는 중층의 원주 상피로 구성되어 있다. 이는 항문선의 상피 세포와 매우 유사한 것이어서 치루는 항문선에서 유래된 것임을 시사하여 준다. 저자들은 무관벽에서 보이는 상피 세포는 Parks¹⁰⁾가 주장한 항문선이 거대하게 낭포성으로 확장된 일부분이라는 데에 의견을 같이 하고 있다. 상피 세포가 무관의 모든 부분에서 보이지 않은 것은 검체를 얻는 과정에 기술적 결함이 있었거나 감염에 의해 상피 세포가 탈락 혹은 파괴되었기 때문이라고 볼 수 있다. 그러나 이러한 상피 세포가 Pople¹³⁾이 추론한대로 비뇨 생식동으로 부터의 이동성 세포가 선천적으로 침투된 것인지는 병리 조직 검사만으로는 설명되기 어렵다. 본 조사중 5개월 남아 치루 1예의 무관벽에서 이행 상피 세포가 집합된 소견을 보인 것이 비뇨 생식동으로 부터의 이동성 세포에서 유래되고 이것이 차후 소아 치루의 원인과 직접관련이 있는 것인지 여부는 사산아를 통한 발생학적인 연구가 차후 더 검토되어야 밝혀질 것이다.

결 론

저자들은 일란성 쌍태아를 포함한 영유아기 치루 환자 21예를 대상으로 임상 소견 및 병리 조직학적인 관찰을 시행한 결과 그 원인은 개개의 항문선이 우연한 기회에 감염이 발생된 후 이차적으로 파급된 것이라기 보다는 모체내에서 감염에 취약한 항문선의 해부학적 구조가 이미 존재하기 때문이며, 이러한 구조는 남아에게 많고 항문연의 중간부 횡선을 기준으로 할 때 주로 좌측방 혹은 좌측 전방에 많으므로 성인과는 현저하게 다른 임상 소견을 보여주는 것이라 판단되었다. 아울러 영유아기 치루의 원인을 파악하는 것은 타당성이 있는 적절한 치료 방법의 선정에 도움을 줄 수 있을 것이라 생각되어 문헌고찰과 함께 보고하였다.

REFERENCES

- 1) Alminski TC, McLean DW: *Proctologic problems in children. JAMA* 194: 97, 1975
- 2) Brem H, Guttman FM, Laberge JM, Doody D: *Congenital anal fistula with normal anus. J Ped Surg* 24: 183, 1989
- 3) Duhamel J: *Anal fistulae in childhood. Am J Proctol* 26: 40, 1975
- 4) Eisenhammer S: *Internal anal sphincter and anorectal abscess. Surg Gynecol Obstet* 103: 501, 1956
- 5) Fitzgerald RJ, Harding B, Ryan W: *Fistula in ano in childhood: A congenital etiology. J Ped Surg* 20 (1): 80, 1985
- 6) Goligher JC, et al: *A critique of anal glandular infection in the etiology and treatment of idiopathic anorectal abscesses and fistulas. Br J Surg* 54: 477, 1967
- 7) Hill MR, Shryock EH, ReBell FG: *Role of the anal glands in the pathogenesis of anorectal disease. JAMA* 121: 742, 1943
- 8) Jeckman RG: *Anorectal fistulas: Current concepts. Dis Colon and Rectum* 11: 217, 1968
- 9) Morgan CN, Thompson HR: *Surgical anatomy of the anal canal with special reference to the surgical importance of the internal sphincter and conjoint longitudinal muscle. Ann Roy Coll Surgeons, England* 19: 88, 1956

- 10) Parks AG: *Pathogenesis and treatment of fistula in ano. Br Med J* 5224: 463, 1961
 - 11) Park EB: *A clinical analysis of fistula in ano. JKSS* 37(6): 789, 1989
 - 12) Park SW, Kim SY: *Characteristics of fistula in ano in childhood. JKSS* 36(5): 672, 1989
 - 13) Pople IK, Ralphs DN: *An etiology for fistula in ano. Br J Surg* 75(9): 904, 1988
 - 14) Shafer AD, McGlone TP, Flanagan RA: *Abnormal crypts of Morgagni: The cause of perianal abscess and fistula in ano. J Ped Surg* 22: 203, 1987
 - 15) Silverman A: *Anal abscess and fistula. Pediatr Clin Gastroen, 3rd, p415, 1983*
 - 16) Takatsuki S: *An etiology of anal fistula in infants. Keio J Med* 25: 1, 1976
-