

고위 항문직장기형에서 전방 팔약근외형 항문함성형술

부산대학교 의과대학 외과학교실

오 남 건·문 상 은

=Abstract=

Preanal Extrasphincteric Proctoplasty on High Type of Anorectal Malformations

Nam-Keun Oah, M.D. and Sang-Eun Moon, M.D.

Department of Surgery, Pusan National University Hospital

The child is so unfortunate as to be born with high type of anorectal malformations, may be saved from a lifetime of misery and social seclusion by the surgeon who with skill, diligence and judgment performs the first operation. Lately several perineal approaches for correction of high type of anorectal malformations were developed and resulted in good progresses.

A clinical analysis was carried out to observe the types of anomalies, preliminary colostomy, operative procedures, postoperative complications and clinical assessment of postoperative continence of thirteen cases of high type of anorectal malformations who were admitted to the department of surgery, Pusan National University Hospital during last 13 years.

The results were as follows.

- 1) In sex distribution, the male to female ratio was 11:2, and in type of anomaly, anorectal malformation with rectourethral fistula was most common(50.0%).
- 2) As preliminary colostomy, sigmoid colostomy (69.2%) was more frequently performed than transverse colostomy.
- 3) According to incision for operative procedure, preanal extrasphincteric proctoplasty was most common(7 cases among total 13 cases; 53.8%), Posterior sagittal anorectoplasty was 3 cases, and abdominoperineal correction was 3 cases.
- 4) Prolapse of rectal mucosa was the most common postoperative complication(50%) in 6 cases of massive mobilization of blind rectal pouch, but urethral injury (1 case: 14.3%) was the most important complication in 7 cases of preanal extrasphincteric proctoplasty.
- 5) Most cases of preanal extrasphincteric proctoplasty on high type of anorectal malformations resulted in good status according to Kelly's clinical assessment for postoperative defecational continence(85.7% : Good).

Key Words: High type of anorectal malformations, Preanal extrasphincteric proctoplasty

서 론

항문직장 기형은 외과의가 흔히 조우하는 난제 중 하나로 출생직후 쉽게 진단이 되며 저위기형은 대개의 경우 간단한 술식으로 치료가 이루어지나, 고위기형인 경우는 그렇지 않다. 고위 항문직장기형은 저자의 경우에는 일반적으로 일차수술인 인공항문 조형술을 시술하고, 약 6개월 이상의 발육후 이차 수술로 교정수술을 시술하며 그 후 약 일개월 이내 삼차수술로 인공항문 폐쇄술을 시술하거나 이차수술중 인공항문 폐쇄술을 동시에 시술하는 치료과정으로 시술하고 있다.

고위 항문직장 기형은 과거에는 높은 사망율과 합병증을 수반하는 난치의 질병 중 하나였으나 근래에 발생학, 해부학 및 배변생리학의 발달과 더불어 소아수술후 수액요법의 개선 및 새로운 수술방법의 개발등으로 그 치료 결과가 상당히 양호한 성적을 보이고 있으나 저자들의 경험으로는 배변조절기능의 평가에서 전방 팔약근 외형 항문합성형술인 경우 가장 만족감을 얻고 있다고 사료된다.

항문직장기형의 교정 수술로 과거에는 개복수술(Rehbein¹⁾, Kiesewetter²⁾등)을 시술하였으나 그 결과 높은 사망율과 이병율로 난치의 질병으로 인식되었으며, Stephens³⁾, Pena⁴⁾등에 의하여 개복함이 없이 후방회음부 접근법으로 항문직장성형술을 시술한 바 사망율과 이병율에서 현저한 호전이 있었으며 배변조절 기능도 상당히 양호한 성적을 보고하고 있으나 직장후벽의 박리 때문에 Recto-striated sphincter reflex의 부분적 손상, 항문직장 경계선의 하향 등에 의한 배변 조절기능이상이 다소의 문제로 남아 있다.

저자들은 부산대학교병원 일반외과에서 1981년 1월 1일부터 1993년 12월 31일까지 고위 항문직장 기형으로 입원하여 교정수술을 시술받은 환자 13예를 대상으로 임상적 비교 관찰을 한 바 최근에 시술한 전방 팔약근외형 항문합성형술 7예에서 배변조절기능의 성적이 과거의 수술법과는 달리 매우 좋은 성적을 나타내고 있어 이에 문헌적 고찰과 함께 보고하고자 한다.

대상 및 방법

1981년 1월 1일부터 1993년 12월 31일까지 부산

대학교병원 일반외과에서 고위 항문직장기형으로 입원하여 생후 9개월에서 2년이내 사이에서 고위 항문직장기형의 교정 수술을 시술받고 치료결과 관정이 가능하였던 13예를 대상으로 하였다. 고위 항문직장기형의 성별분포, 인공항문 조형술의 종류, 절개방법에 따른 교정수술의 종류, 수술후 휴유증, Kelly⁵⁾의 방법에 따른 배변 조절기능의 평가등을 분석하여 특히 최근에 시술한 전방 팔약근외형 항문합성형술 7예와 비교 관찰하였다.

성 적

1) 분류 및 성별 분포

남자가 11예, 여자가 2예로 남녀의 비는 11:2 이어서 남자에 압도적으로 많았다. 누공이 전혀 없었던 예가 5예, 직장요도 누공이 있던 예가 6예, 그리고 직장-질 누공이 있었던 예가 2예이었으며, 직장요도 누공이 전체의 50%로 가장 많았다(Table 1).

2) 인공항문 조성술의 종류

횡행결장 인공항문 조성술이 4예, S-상 결장인공항문 조성술이 9예이었다. 특히 최근에 시술한 전방 팔약근외형 항문합성형술 7예 전부는 S-상 결장 인공항문 조성술을 시행하였던 예이었다(Table 2).

Table 1. Site of fistula in high type of anorectal malformations

	Male	Female
Without fistula	5	0
With rectourethral fistula	6	0
With rectovaginal fistula	0	2
Total	11	2

Table 2. Types of preliminary colostomy

Types of colostomy	No. of cases
Transverse colostomy	4
Sigmoid colostomy	9
Total	13

3) 교정수술의 종류

복회음 교정수술로 시술받은 예가 3예, 후방 회음부 항문직장성형술(Stephan, Pena 등)로 시술받은 예가 3예, 그리고 전방 팔약근외형 항문합성형술로 시술된 예가 7예이었다(Table 3).

4) 수술 휴유증

술후 휴유증으로는 직장점막탈출이 직장낭을 절반이상 박리한 6예중 3예(27%)에서 발생하여 가장 많았으며, 직장무력증이 2예(18%), 항문협착이 1예(9%)등이었다. 직장낭을 거의 박리하지 않은 전방 팔약근외형 항문합성형술 7예에서는 술후 초기 합병증으로 1예에서 요로 손상이 발생하여 가장 중요한 합병증으로 사료되나 시간이 지나면서 자연치유가 되었다(Table 4).

5) 배변 조절 기능의 임상적 평가

(Kelly's score)

술후 배변 조절 기능에 따른 Kelly⁵⁾씨 임상적 분류 방법에 의하면 Accidents(불의의 배변), Staining(대변에 의한 항문주위 오염), Sphincter squeeze(항문팔약근의 수축력) 등을 검사항목으로 하여 각 항목에서 부적절 관정에 0점, 정상기능에 2점, 그리고 중간 기능에서 1점으로 점수를 주어서 3가지 항목의 점수를 모두 합산하여 각각의 수술예에서 Kelly씨 점수가 0~2점을 poor(완전 변실금 상태), 3~4점을 fair(때때로 변실금을 하기는 하나 대부분 정상과 비슷한 배변기능을 가진 것), 5~6점을 good(거의 정상적인 배변기능을 가진 것)으로 분류하여 비교 관찰하였다.

상기 방법에 의한 배변 조절 기능의 원격성적 평가는 복회음 교정수술 3예중 2예가 poor 그리고 1예가 fair이었고 good은 전무하여 복회음 교정수술 후 배변기능은 불량하였다. 후방 회음부 항문직장성형술 3예중에서는 poor는 없었고 fair가 2예 good이 1예로 다소 호전된 성적이었으나 완벽한 배변 조절 기능을 남기지는 못하였다.

전방 팔약근외형 항문합성형술을 시술 받은 7예중 6예는 배변 조절 기능의 임상적 평가가 good의 소견으로 판정되어 매우 양호하였고 거의 완벽한 배변 조

Table 3. Types of definitive operation

Operative procedures	No. of cases
Abdominoperineal correction	3
Posterior sagittal anorectoplasty	3
Preanal extraspincteric proctoplasty	7
Total	13

Table 4. Postoperative complications

Type of complication	Rectal Mobilization* (n=6)	preanal proctoplasty (n=7)
Prolapse of rectal mucosa	3	0
Rectal inertia	1	1
Anal stricture	1	0
Urethral injury	0	1
Total	4	2

*6 cases of rectal mobilization means 3 cases of abdominoperineal correction & 3 cases of posterior sagittal anorectoplasty.

Table 5. Clinical assessment of continence by Kelly's score

Operative procedure	Poor	Fair	Good
Abdominoperineal correction	2	1	0
Posterior sagittal anorectoplasty	0	2	1
Preanal extraspincteric proctoplasty	0	1	6
Total	2	4	7

Poor: score 0-2, Fair: score 3-4, Good: score 5-6

절 기능을 보였다.

그러므로 고위 항문직장 기형의 교정수술중 전방 팔약근외형 항문합성형술이 배변 조절 기능의 평가에서 6예(85.7%)에서 good(정상적 배변기능)으로 매우 우수한 소견을 보였다(Table 5).

고 찰

선천성 항문직장기형의 진단 방법으로는 Wan-

gensteen Rice technique⁶⁾, prone crosstable lateral view⁷⁾, fistulogram, distal cologram (loopogram), 전산화 단층촬영 등이 실시되고 있다. Wangenstein Rice technique⁶⁾는 생후 12~18시간이 지나면 공기가 소화기관을 거쳐 직장에 도달하므로 수분간 완전 도립 체위(invertogram)를 유지한 후 촬영하면 항문직장기형의 위치를 알 수 있다고 하였다. 이 방법의 문제점은 5분에서 10분간 완전 도립 체위를 유지해야 하고 누공이 있으면 직장이 잘 보이지 않을 수 있으며 복압의 변화에 따라 직장이 2~3 cm 상하로 움직이므로 진단의 정확성이 적다. Narasimharo 등⁷⁾은 엎드린 자세(prone position)에서 직장이 장관중에 가장 높은 부분이기 때문에 prone cross-table lateral view로 고위 기형과 저위 기형을 구분할 수 있다고 하였다. 이 방법은 자세를 취하기가 쉬우며, 환자의 저항이 적으며, 중력의 영향을 배제할 수 있고 직장내 공기의 유영이 잘 보이게 할 수 있는 장점이 있고 invertogram⁶⁾과 비교하여 갈거나 더 많은 정보를 제공하므로 항문직장기형에서 상례적으로 사용하는 것이 좋다고 하였다. 그 외 방법으로 fistulogram, distal cologram 및 전산화 단층촬영 등을 통하여 직장 하단부와 항문의 위치를 비교 관찰하여 직장낭이 치미골선(pubococcygeal line)상방에 위치한 것을 고위기형으로 분류하여 이것을 수술중 확인된 예에 대하여 그 성적을 조사 분석하였다.

인공항문 조성술은 과거에는 횡행결장을 많이 이용하였으나 S-상결장 인공항문 조성술보다 합병증이 많고 술후 care가 어렵고, distal loop내 대변의 배변이 잘 안되며 비뇨기계와의 누공이 있는 경우 세척이 잘 안되어 반복적인 비뇨기계 감염을 일으키므로 S-상결장을 이용하는 것이 좋다고 Bill⁸⁾, Taneja⁹⁾, Santall¹⁰⁾ 등이 권장하고 있다. 특히 최근에 Nixon¹¹⁾ 등에 의해 시술되고 있는 전방 팔약근외형 항문함성형술에서는 S-상결장 부위에 loop colostomy를 실시하여 술중 distal loop로의 기계삽입이 용이하다.

고위 항문직장기형의 수술방법은 매우 다양하나 여기에서는 절개방법에 따라 복회음교정술, 후방회음부 항문직장성형술 및 전방팔약근외형 항문함성형술로 나누어 그 성적을 비교 평가하였다. 복회음교정술(Abdomino-perineal pull-through술식)은, Rehbein술

식¹²⁾, Kiesewetter¹³⁾술식 등이 있으며, 후방회음부 교정술은 Stephens¹⁴⁾법 그리고 Pena¹⁵⁾법 등이 있다. 전방팔약근외형 항문함성형술은 Mollard¹⁶⁾등이 1978년 고위 항문직장기형에서 복 전방 회음부 교정술식으로 전방 회음부 절개법을 소개하였고, 그후 Nixon¹¹⁾이 항문직장기형에서 제창한 방법으로 Minimal mobilization inversion proctoplasty가 시도되었으나 아직 널리 이용되고 있지 않는 상태이며, 저자는 고위 항문직장기형에서 Nixon¹¹⁾이 시도한 방법으로 전방 팔약근외형 절개후 팔약근외형접근법으로 직장낭 말단부를 노출시킨뒤 S상 결장 대장루로 rectal pusher를 방아 찡듯이 밀어넣어 직장낭을 하향시켜 항문함성형술을 시술한 바, 그 세밀한 수술조작은 다음과 같다.

Preliminary colostomy가 middle sigmoid에서 행해지고 완벽한 검사가 필요하며 동반된 기형을 진단해야 한다. 이때는 임상적 진찰, spine X-ray (sacrum 포함), 신장 뇨관 방광의 초음파, voiding cystourethrography, distal loopography 그리고 일반 혈액 및 소변검사등이 포함된다.

환자는 적당한 소아용 수술대에 perineolithotomy position을 취한다(Fig. 1). 그리고 미리 실시하는 sigmoid colostomy를 Lt. iliac fossa에 두면, surgeon은 colostomy를 위해 개복할 필요가 없다. urethral sound는 palpation으로 bulb의 위치를 결정하기 위해 삽입한다. 또는 cystotomy를 통해 위에서부터 이 sound를 삽입하는 방법이 더 편리하다. 이것은 sound의 handle이 operator를 방해하는 것을 피할 수 있고, 시술 끝에 suprapubic catheter의 삽입에도 사용된다. 그후 semicircular incision은 urethra의 bulb 바로 뒤를 apex로 하고, normal anal site의 level에서 ischial tuberosities 사이에 base가 되게 만든다. 이런 환자들에서는 proctodeal site를 나타내는 modified skin이 대개 정상 항문위치 피부(pigmentation site)보다 약간 앞에 있다(Fig. 2).

Skin flap(식판)속에 있는 외팔약근의 근섬유들이 perineal body와 만나는 부위에 Kelly를 놓고 박리한다. subcutaneous fat을 flap뒤로 돌리기 위해 diathermy로 박리한다. urethra 바로 뒤에서 blunt한 박리를 하면, puborectalis sling의 lower border가 구별되고 이를 부드럽게 뒤로 늦추어 지게

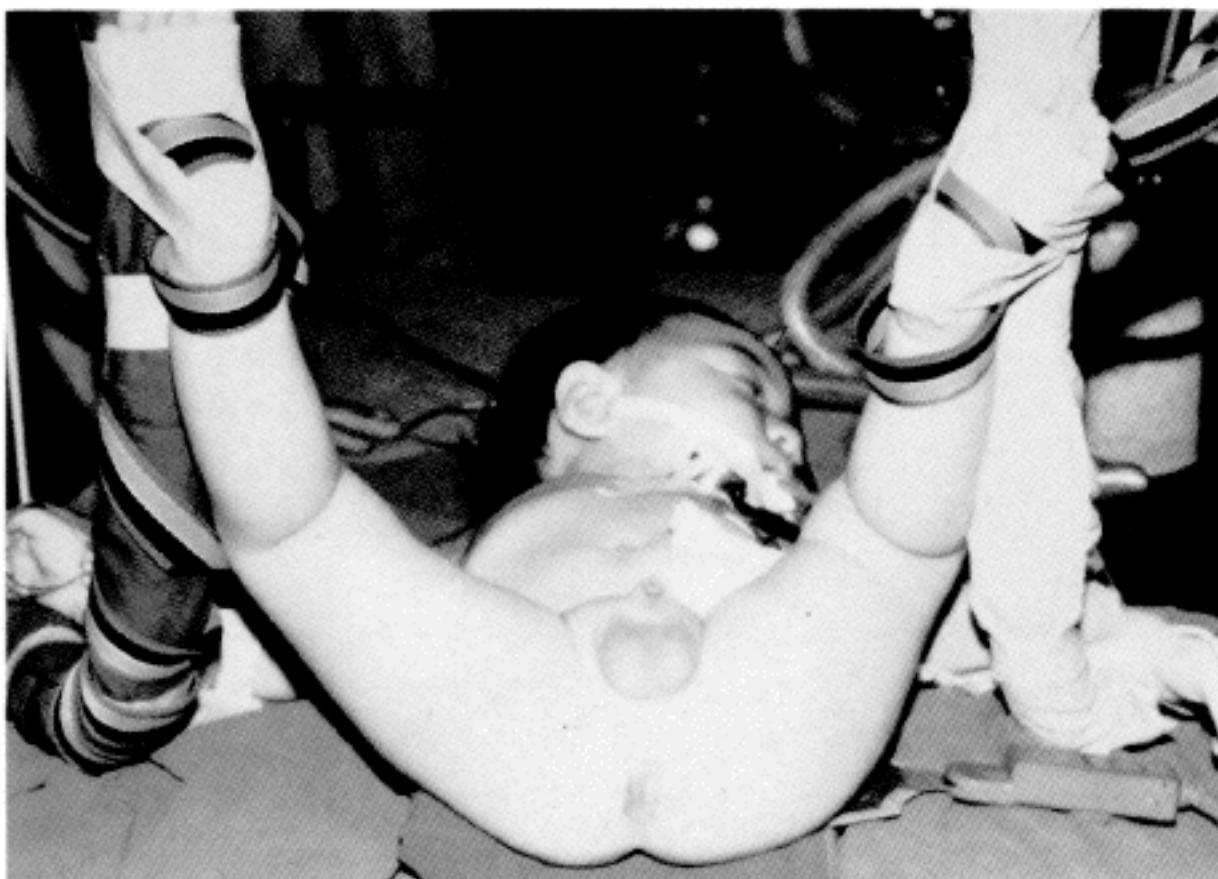


Fig. 1. Perineolithotomy position was applied, it afford excellent operative field in anorectal surgery.

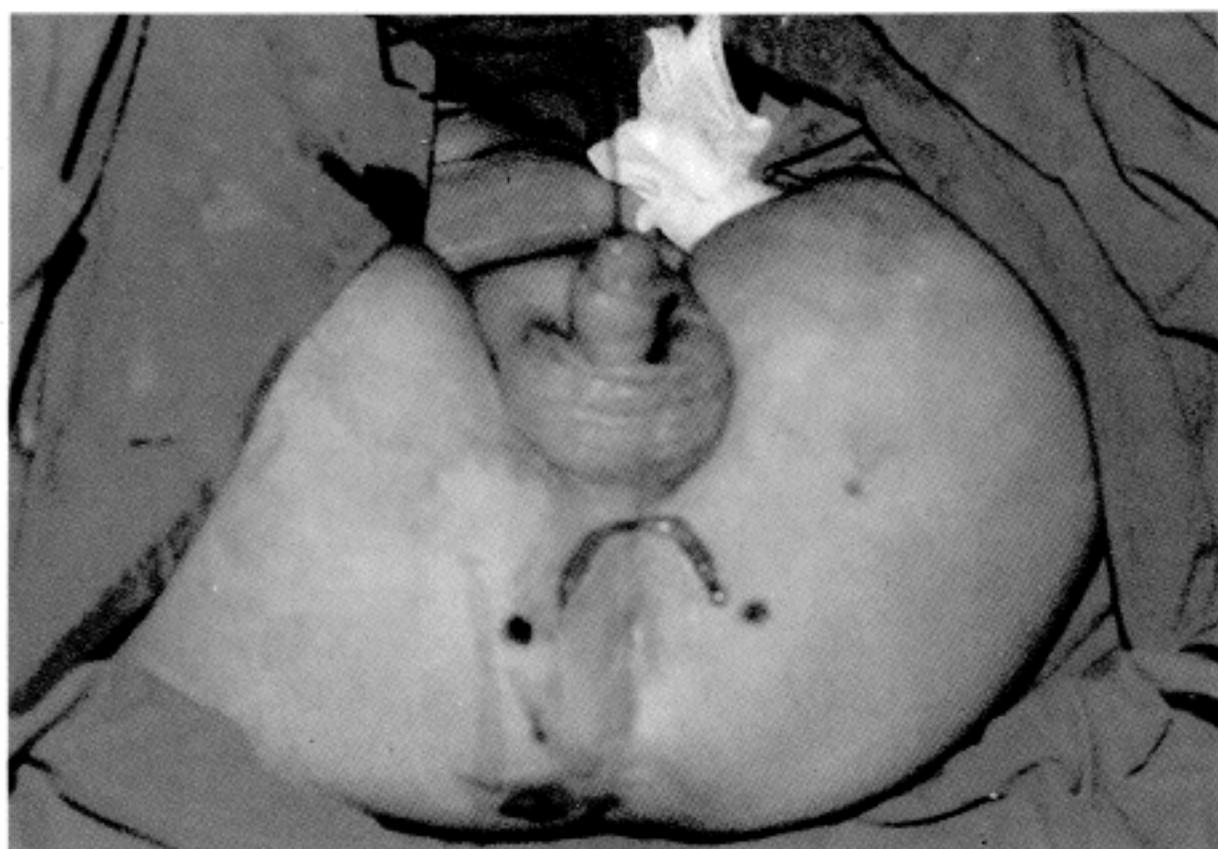


Fig. 2. Preanal extraspincteric incision: Bilateral ischial tuberosity was marked, and semicircular anterior or perineal incision was designed for exposure of bulbocavernous muscle & puborectalis sling. Preanal extraspincteric incision was deepened up behind bulbocavernous muscle. In this approach, there is little muscle cutting.

끌이 둔한 Kelly로 bulb와 puborectal sling 사이를 박리한다(Fig. 3). 기다란 방아같은 rectal pusher를 Lt. iliac sigmoid colostomy로 통과시킨다. placental forcep으로 대용할 수도 있다. 이것은 직장의 하단부를 전방 회음부 절개부의 bulb 뒤쪽의 space로 밀어넣기 위해서이다. 만약 transverse colostomy가 시행되었으면 하복부를 약간 개복하는 것이 sigmoid colostomy를 술중 일시적으로 만들기 위해 필요하다. 직장 하단부까지 밀어 넣은 rectal pusher를 이용하여 방아찧듯이 Fig. 3 방향으로 밀어내면 된다(Fig. 4).

직장의 하단부는 견인봉합사로 고정하며 그 끝을 절개한다. 누공주위에 조심스럽게 절개를 가한다. urethral & bowel sound를 사용해 정확한 위치를 유지하고 요도의 손상을 피한다. 박리를 하면서 요도손상부위는 5/0덱산으로 연속 봉합한다. 직장은 대개 넓고 두꺼운 근육층을 가지고 요도에 가까이 있으나 가끔 끝이 서서히 얇아져 있다.

가끔, patent fistula가 없는 anorectal agenesis에서 직장이 요도에 아주 가까이 붙어 있다. 그러나 조심스런 방법으로 쉽게 분리시킬 수 있다(Fig. 3,

4).

일반적으로 정상 항문 부위(pigmentation site)보다 약간 앞쪽 부위에 변형된 피부(reflex sensitivity가 있는 피부)가 존재하기 때문에 이 부위에 spinal needle로 관통시킨 다음 십자 피부절개를 넣고 cruciate skin flap을 만든다(Fig. 5).

skin flap을 반전시켜 보면, 외팔약근이 서로 교차하면서 knot를 형성하고 있는 것을 관찰할 수 있으며 이 부위를 이미 관통된 spinal needle을 따라 mosquito tip으로 쉽게 박리하여 tunnel을 만들 수 있다. 이때 정확도를 높이기 위하여 전기자극 기계를 사용하여 항문관을 만들 수도 있다(Fig. 5).

Fig. 5에서와 같이 외팔약근을 통하여 관을 형성한 다음 skin flap 전체를 Fig. 9 부위인 직장 하단부에 가까이 가져가서 Fig. 5의 cruciate incision부위로 직장 하단부를 보이게 한다(Fig. 5).

Cruciate skin flap과 직장 하단부 절개를 크기가 비슷하게 하여 5/0 Dexon 봉합사를 사용하여 변형된 피부, 피하 근육 및 직장 하단부를 일시에 봉합한다. rectal ampulla를 박리하지 않았기 때문에 봉합이 끝나면 변형된 피부(cruciate skin incision 부

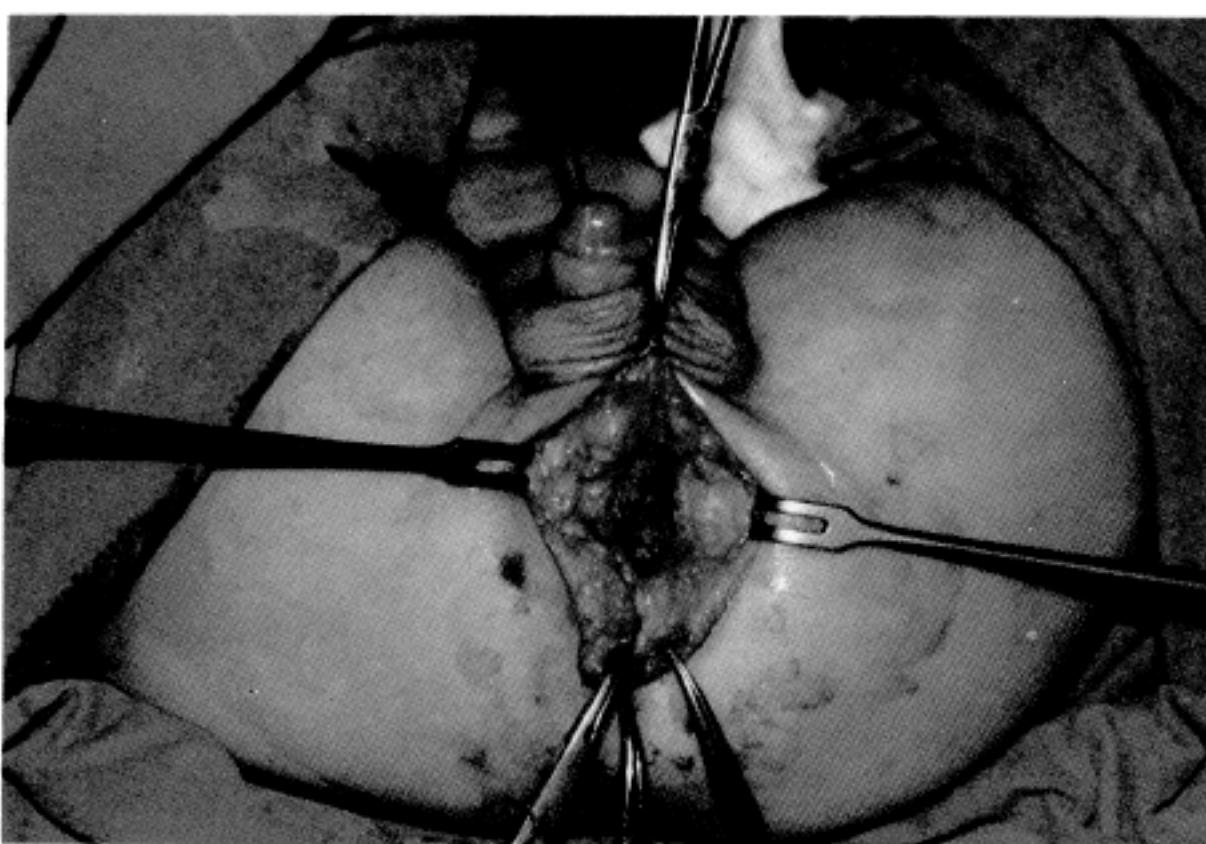


Fig. 3. Urethral metal sound was palpable, and it was a guide for dissection of retrourethral plane. (Denonvillier's fascia) Puborectalis sling was identified, and external anal sphincter was retracted in the skin flap posteriorly.

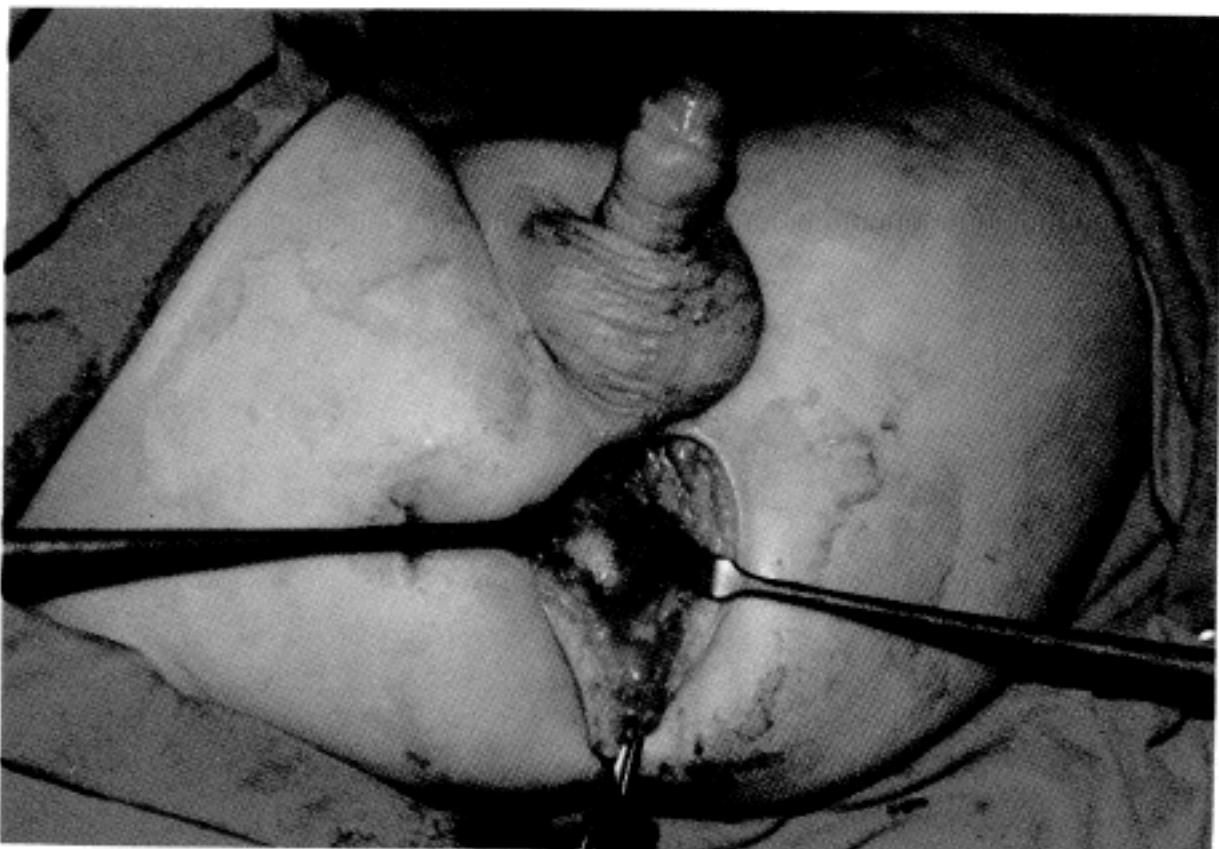


Fig. 4. The lower border of puborectalis sling was separated from rectourethral fascia(Denonvillier's fascia), and rectal pusher was applied through the distal stoma of double barrel sigmoid colostomy. Prerectal dissection was performed, and intraluminal irrigation of dye was performed through the distal stoma of sigmoid colostomy for identification of any rectourethral fistula or injuries.

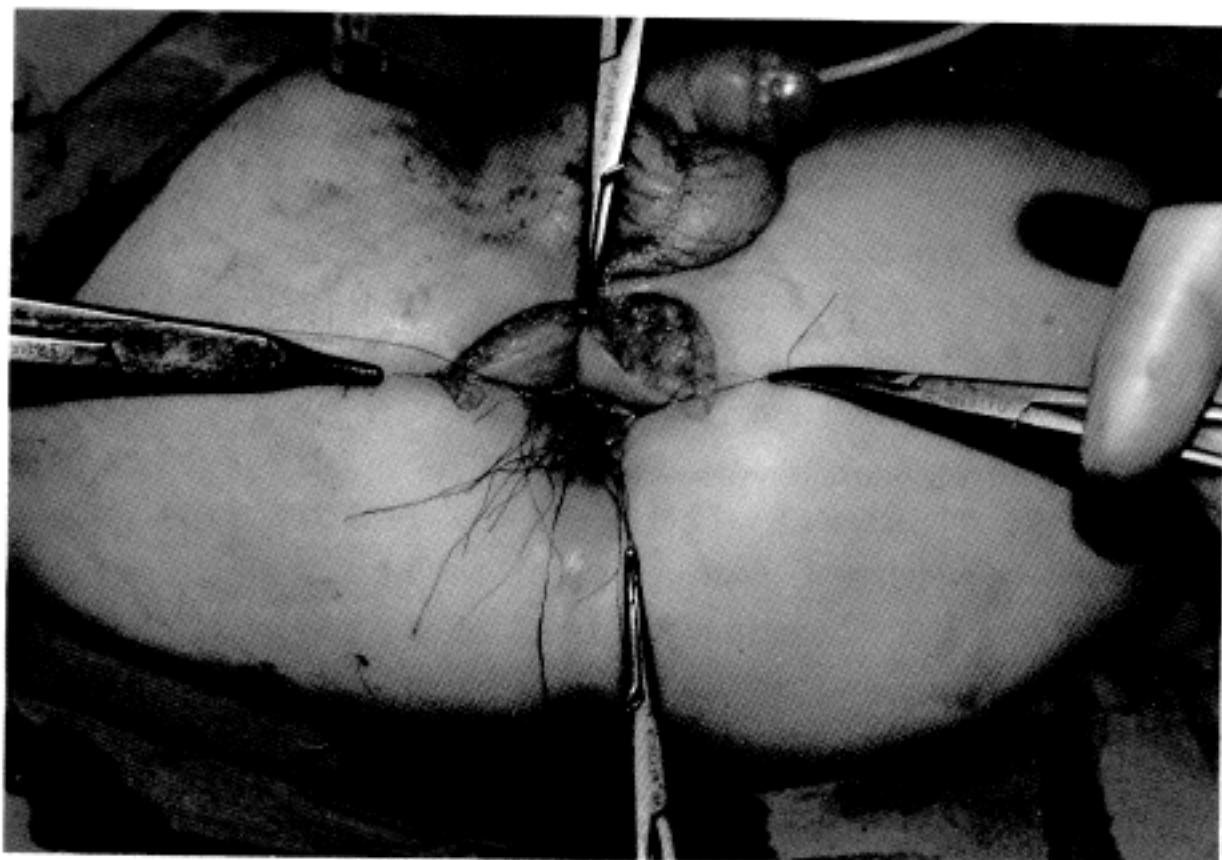


Fig. 5. A spinal needle was introduced through anal dimpling, and cruciate incision was madden, and then dilatation of anal pathway was performed through the previous puncture site of the spinal needle. Rectoanal anastomosis was performed in Gambee suture. Inversion proctoplasty was performed, because minimal rectal dissection resulted in dimpling of rectoanal anastomosis site.

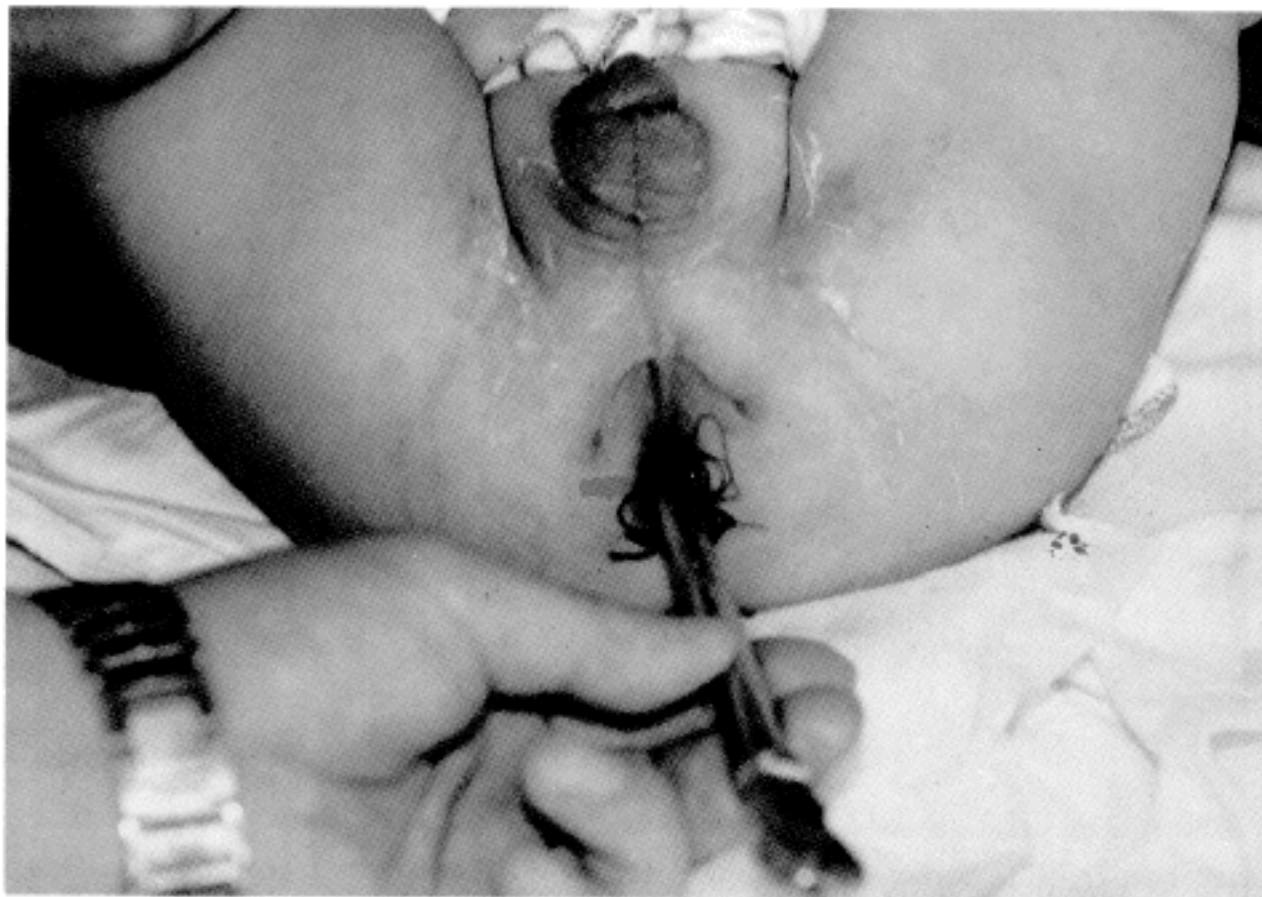


Fig. 6. Preanal extrasphincteric fascia was sutured to the fascia of bulbocavernosus muscle. Hegar dilator(No. 12) was inserted through newly maden anal canal. Postoperative dilatation of anal canal was performed with Hegar dilator.

위)는 직장쪽으로 당겨 올라간다. 그래서 항문직장 문합부위의 reflex sensitivity가 있는 변형된 피부 위치가 dentate line 위치에 해당되는 puborectalis sling부위에 위치하게 된다(Fig. 5, 6).

수술후 처치로는 urethral catheter는 7일째 제거한다. descending voiding cystourethrogram 이 suprapubic catheter를 통해 10일째 시행한다. 모든것이 좋으면 14일째 sound를 rectum에 통과시켜 지름을 쟁다. 수술 3주후나 그후 colostomy closure를 고려한다.

신생아에서는 closure전에 적어도 No.8 이상의 Hegar dilator가 들어갈 수 있어야 된다. routine dilatation이 꼭 필요하지는 않지만 continuous check가 필요한 것은 early stenosis가 이미 형성된 stricture보다 치료하기 쉽기 때문이다(Fig. 6).

결 론

저자들은 부산대학교병원 일반외과에서 1981년 1월 1일부터 1993년 12월 31일까지 고위 항문직장기형으

로 입원하여 교정수술을 시술받은 환자 13예를 대상으로 임상적 비교 관찰을 한 바 최근에 시술한 전방 팔약근외형 항문합성형술 7예에서 배변조절기능의 성적이 저자들이 경험하였던 직장낭이 절반이상 박리된 수술법 6예 보다는 좋은 성적을 나타내고 있어 이를 요약하면 다음과 같다.

- 1) 성별분포는 남녀의 비가 11:2로 남자에 많았고, 고위 항문직장기형의 누공별 분류는 직장 요도 누공이 6예(50%)로 가장 많았다.
- 2) 인공항문 조형술 종별은 S-상 결장 인공항문 조형술이 9예(69.2%)로 많았다.
- 3) 절개방법별 교정수술의 분류로 보면 전방팔약근 외형 항문합성형술이 7예(53.8%)로 가장 많았고 복회 음교정술이 3예 그리고 후방회음부 항문직장성형술이 3예 이었다.
- 4) 술후 휴유증은 직장 점막 탈출이 직장낭 박리를 충분히 시행한 6예중 3예(50%)에서 발생하였고, 직장낭 박리를 최소로 시술한 전방 팔약근외형 항문합성형술 7예에서는 술후 초기 요로손상 1예가 가장 중요한 합병증이었다.

5) 배변조절 기능의 Kelly's score에 의한 임상적 평가로는 전방 팔약근외형 항문합성형술 7예 중 6예 (85.7%)에서 good의 소견을 보여 향후 계속적인 관찰이 요할것으로 사료된다.

REFERENCES

- 1) Rhebein F: *Imperforate anus: Experiences with abdominoperineal and abdomino-sacral-perineal pull-through procedures.* J Pediatr Surg 2: 99, 1967
- 2) Kiesewetter WB: *Imperforate anus: The role and result of the sacroabdominoperineal operation.* Ann Surg 64: 655, 1966
- 3) Stephens FD, Smith ED: *Ano-rectal malformations in children.* Yearbook Medical Publisher Co, Chicago, p545, 1971
- 4) Pena A, deVries PA: *Posterior sagittal anorectoplasty: Important technical considerations and new applications.* J Pediatr Surg 17: 796, 1982
- 5) Kelly JH: *The clinical and radiological assessment of anal continence in childhood.* Aust NZ J Surg 42: 62, 1972
- 6) Wangensteen OH, Rice CD: *Imperforate anus. A method of determining the surgical approach.* Ann Surg 92: 77, 1930
- 7) Narasimharao KL, et al: *Prone cross-table lateral view an alternative to the invertogram in imperforate anus.* AJR 140: 227, 1983
- 8) Bill AH: *Pathology and surgical treatment of imperforate anus.* JAMA 166(12): 1429, 1958
- 9) Taneja OP, et al: *Management of congenital anorectal malformations in India.* Arch Surg 100: 47, 1970
- 10) Santulle TV, et al: *Imperforate anus: A survey from the members of the surgical section of the american academy of pediatrics.* J Pediatric Surg 6(4): 484, 1971
- 11) Nixon HH: *Minimal mobilization inversion proctoplasty; Spitz L & Nixon HH: Rob & Smith's Operation Surgery, Paediatric Surgery 4th ed, p370 Butterworths, 1988*
- 12) Mollard P, et al: *Surgical treatment of high imperforate anus with definition of the puborectalis sling by an anterior perineal approach.* J Pediatr Surg 13: 6, 1978
- 13) Nixon HM, Callaghan R-P: *Anorectal anomalies: physiological consideration.* Arch Dis Childh 39: 158, 1964