

만성 치루에서 발생한 선암 2예

국립의료원 일반외과

윤 서 구 · 이 태 주 · 우 제 홍

= Abstract =

2 Cases of Adenocarcinoma Developing in Chronic Anal Fistula

Seo Gue Yoon, M.D., Tae Joo Lee, M.D. and Ze Hong Woo, M.D.

Department of General Surgery, National Medical Center

Adenocarcinoma developing in a chronic anal fistula is a rare tumor of the anus. There has been some debate as to whether the fistula is the source of the tumor, or whether the fistula is the presenting feature of a slow-growing, indolent carcinoma. The tumor is slow-growing, very well-differentiated adenocarcinoma that characteristically has a colloid appearance. Although the natural history of this tumor is long, it will eventually metastasize, often to inguinal lymph node. Treatment of choice is an abdominoperineal resection with wide resection of the buttock mass, which can be curative if the diagnosis is made early. Recognition of the appearance of mucin globules in fistulectomy specimens can alert the pathologist to the possibility of perineal mucinous adenocarcinoma, resulting in earlier diagnosis and treatment. We experienced two cases of adenocarcinoma developing in chronic anal fistula, which was treated by abdominoperineal resection. So, we reported the cases and reviewed the related literatures.

Key Words: Adenocarcinoma, Chronic anal fistula

서 론

항문부위의 암은 전체 대장 항문 종양의 2~6%를 차지하며 이들 중 대부분은 상피세포암이나 기저세포암과 같이 외배엽에서 기원하며 선암은 드물다¹⁾. 만성 치루와 병발되는 암종의 형태는 첫째, 대장암과 병발된 치루, 둘째, 원발성 혹은 재발성 암종이 치루로서 나타난 경우, 셋째, 만성 치루에서 병발한 암종으로 나눌 수 있다^{2,3)}.

만성 치루에 연관되어 나타나는 항문부위의 선암은 매우 드문 종양으로서 종양이 발생하여 이차적인 치루의 형태를 보이는 것인지, 혹은 만성치루에서 보이는

만성염증 및 반흔에 대한 반응으로서 종양이 발생하는지에 대하여는 아직도 아직도 논란이 많다. 만성치루에서 발생한 선암의 특징적인 임상증세는 대개 장기간의 만성치루의 과거력이 있으며 대둔부에 종괴가 있고 간혹 교액성 분비물을 호소하고 직장점막은 정상이며 주로 서혜부 림프절에 전이를 일으킨다. 비록 서서히 성장하고, 조직소견상 분화암이 많지만 대개 만성치루 혹은 항문주위농양과 동반되므로 조기진단이 어렵고 따라서 예후가 매우 불량한 경우가 많다. 최근에는 치루절제술 당시의 조직소견이 항후의 종양 발생을 시사하는 소견에 대해 조직학적 연구가 있었으나 충분하지 않다.

저자들은 내원 4년 전에 치루절제술을 받았으나 수

술 후 간헐적인 치루의 재발을 경험하였던 46세 남자 환자로써 내원 당시 항문관 주위에 종괴를 주소로 내원하여 직장경 검사상 직장점막은 정상이었고 종양에 대한 조직검사는 점액성 선암으로 나와 복회음절제술을 시행받았던 환자와 45세 남자로 8년전 치루 수술을 받은 후 간헐적인 재발이 있었으며 1개월간의 항문소양감을 주소로 내원하여 조직검사상 선암진단 받고 복회음절제술시행 받은 증례가 있어 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

증례 1.

환자는 46세 남자로 4개월 전부터 서서히 자라온 항문종괴와 배변장애 및 간헐적인 항문출혈을 주소로 내원했다. 과거력상 내원 4년전에 치루절개술을 시행했다. 치루수술 당시 환자는 내원 14년전부터 만성적인 치루증세 및 간헐적인 항문주위 부종 및 통증을 호소하다가 내원 4년전 5시, 6시, 7시, 9시 방향에 다발성 외공을 동반한 치루를 주소로 내원하여 마제형치루 진단하에 치루절개술을 시행받았으며 수술시 치루의 외공은 모두 연결되어 있었으며 내공은 6시 방향의 치상선에 위치하였다. 조직검사는 비특이적 만성염증을 동반한 치루의 소견을 보였다. 치루절개술 후 환자는 간헐적인 치루의 재발을 경험하였으나 보존적 요법으로 치료하였고 본원에 내원하지 않았다. 내원 4개월 전부터 서서히 성장하는 종괴가 항문부에 발생하였고 배변장애, 간헐적인 항문출혈을 호소하였으나 체중감소는 호소하지 않았다.

이학적 소견: 내원당시 체온은 37°C, 맥박 90회/분, 혈압은 140/90 mmHg이었다. 비교적 건강하였고 직장수지검사상 항문연에서 3cm 거리에서 궤양을 동반한 항문의 종괴가 후방(3시에서 10시방향)에서 촉진되었으며 항문관이 종괴로 인한 협착의 소견을 보였다. 수지 검사시 종양에서의 출혈소견을 보였다. 치루절개술을 시행한 반흔이 보였으며 치루의 내공이나 외공은 없었다.

검사소견: 혈액 검사는 정상이었으며 혈중 CEA는 11.2 ng/ml로 증가된 소견을 보였으며 심전도 소견상 과거에 있었던 심근경색이 있었다. 에스겔장경 소견상 직장점막은 정상이었고 후방 회음부쪽에서 항문관 쪽



Fig. 1. The anal mucosa shows 5×4, 5×3 cm sized pale grayish to granular tumorous lesion which arises from previous fistular tract.

으로 돌출하는 5cm 크기의 종괴가 관찰되었고 조직검사는 점액성 선암의 소견을 보였다.

방사선학적 검사: 골반 컴퓨터단층촬영상 직장에 종괴는 관찰되지 않았고 항문부에 종괴가 후방 회음부까지 침습한 소견을 보였으며 서혜부나 장간막의 림프절 종대의 소견은 없었다. 바륨 대장조영술상에는 대장이나 직장에 다른 종괴는 없었다.

수술 소견: 만성치루에 병발한 항문부 점액성 선암의 진단하에 복회음절제술을 시행하였다. 수술수전상 원격전이나 림프절 전이는 없었고 종양이 주위둔부의 근육층을 침범하여 침범부위를 광범위하게 절제하였다.

병리 소견: 절제표본 소견은 직장점막은 정상이나 항문관의 협착이 매우 심하였고 항문관 점막에 5×4.5×3.0cm 크기의 옅은 갈색의 종괴가 치상선 하방의 항문관에 있었고 회음부로 침습한 소견을 보였다. 종괴가 치루의 내공이 위치한 쪽에 있었으나 특별히 잔존하는 치루는 발견하지 못했다(Fig. 1). 조직검사는 항문관의 점액성 선암으로서 주위 둔부의 근육층을 침윤했으며 원위 절제단에 암세포가 잔존하였고 직장주위 림프절은 음성이었다. 종괴는 현미경 소견상 다양한 크기의 점액성 낭(mucous lake)을 형성하고 있었으며 부분적으로 비전형적인 원주상피세포로 둘러싸여 있었으며 간질조직에서 결합조직유착 반응(desmoplastic reaction)을 보이는 점액성 선암이었다(Fig.

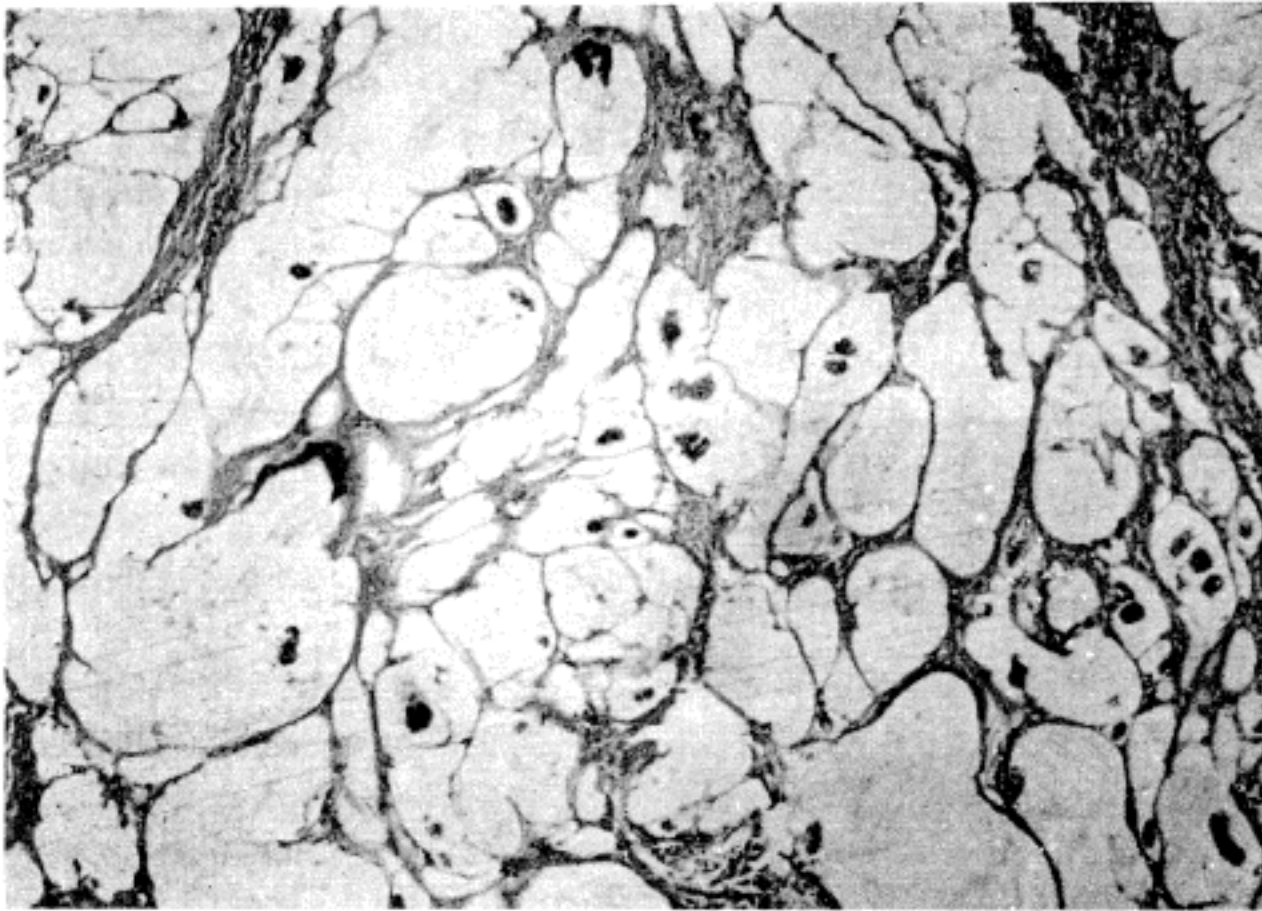


Fig. 2. The tumor is composed of abundant mucin pools and floating tumor cell nest($\times 40$, H&E).

2).

수술후 경과: 환자 수술 후 복부의 상처감염외에 특별한 합병증없이 퇴원했으며 6회의 cis-platin, 5-FU로 화학요법(cis-platin 360 mg, 5-FU 30 g)과 방사선치료(골반강 4500 cGy, 회음부 900 cGy, 총 5400 cGy)를 받았다. 술후 1년 만에 서혜부 림프절에 전이 소견 보였고 그후 흉벽 및 복벽에서도 전이가 확인되었으며 술후 1년 6개월만에 다발성 원격장기 전이로 사망하였다.

증례 2.

환자는 45세 남자로 1개월간의 항문소양감, 간헐적인 항문부 출혈을 주소로 내원하였다. 과거력상 내원 12년전에 타원에서 치핵절제술을 시행받았고, 내원 10년전에 좌골직장형(ischioirectal type)의 항문주위농양으로 항문관의 3시 방향에 절개 및 배액술을 시행받은 후 4개월 뒤 3시 방향에 항문주위농양이 재발하여 타원에서 다시 절개배액술을 시행받은 후 간헐적인 치루 및 항문주위농양의 재발을 경험하였다. 내원 8년전 1시 및 3시 방향의 외공과 1시 방향의 내공을 가진 치루발생하여 치루절제술을 시행하였다. 당시 조직소

견은 염증세포의 침윤과 섬유화를 동반한 치루였으며 술후 간헐적인 치루의 재발을 경험하였으나 대증요법에 의지하여 지내다가 내원 1개월 전부터 항문 소양감, 간헐적인 항문출혈 및 분비물을 주소로 내원하였으며 배변장애, 체중감소 등은 없었다.

이학적 소견: 내원 당시 체온은 37.2°C였으며 맥박은 분당 85회 혈압은 130/90 mmHg로 비교적 건강하게 보였고 1시 및 3시 방향에 과거 치루절제술의 반흔이 보였으나 치루의 내공이나 외공은 없었다. 직장수지검사상 치상선 위치에 종괴가 1시에서 11시 방향으로 촉지되었고 촉진상 출혈소견 보였고 종괴 중심에 궤양이 있었다. 서혜부에서 림프절의 종대는 없었다.

검사 소견: 혈액학적 검사나 수술전 기본검사에서 특별히 이상소견은 없었으며 혈중 CEA는 6.5 ng/ml였다. 직장경 검사상 증상에 궤양을 동반한 2cm 가량의 종괴가 항문관의 1시에서 11시 방향에서 치상선 상에 위치해 있었고 직장점막은 정상이었다. 조직검사 소견은 편평상피와 이행상피에 걸쳐 존재하는 점막에서 발생한 중간정도의 분화도를 가지는 선암 소견을 보였다.

방사선 소견: 복부 및 골반 컴퓨터 단층촬영 소견상 원격전이나 서혜부, 직장주위 림프절 전이는 없었으며 항문연에 좌측벽의 비후를 보이는 종괴가 있었으며 특별히 둔부근육이나 회음부를 침습한 소견은 없었다. 바륨 대장조영술상에서 다른 대장 종괴는 없었다.

수술 소견: 치루에서 발생한 항문선암의 진단하에



Fig. 3. The tumorous lesion at the dentate line which arising from internal opening of previous fistula. Rectal mucosa is well preserved.

복회음 절제술을 시행하였다. 수술소견상 종괴주위의 장기의 침습은 없었다.

병리 소견: 절제표본상 궤양을 동반한 2×2 cm 크기의 종괴가 치루의 내공이 위치해 있던 1시 방향의 치상선에 위치하고 있었고 항문주위 치루의 반흔을 절개했을 때 기존의 치루절제술의 반흔과 연결되어 있었으며 직장점막은 정상이었다. 조직소견은 중등도의 분화도를 가진 선암이었으며 중층편평상피세포에 연하여 암세포가 보이며 선상구조(grandular tissue)에 암세포윤이 있었다(Fig. 3, 4). 직장주위 림프절전이 없었으며 근위부, 원위부 절달면에서 종양세포는 없었다.

수술후 경과: 수술 후 특별한 합병증 없이 퇴원했으며 5-FU와 levamisole로 화학요법을 했으며 회음부에 방사선치료(5400 cGy) 시행했다. 현재 수술 후 12개월 추적중이며 재발이나 전이 소견은 없다.

고 찰

만성 치루에 연관되어 나타나는 항문부위의 점액성

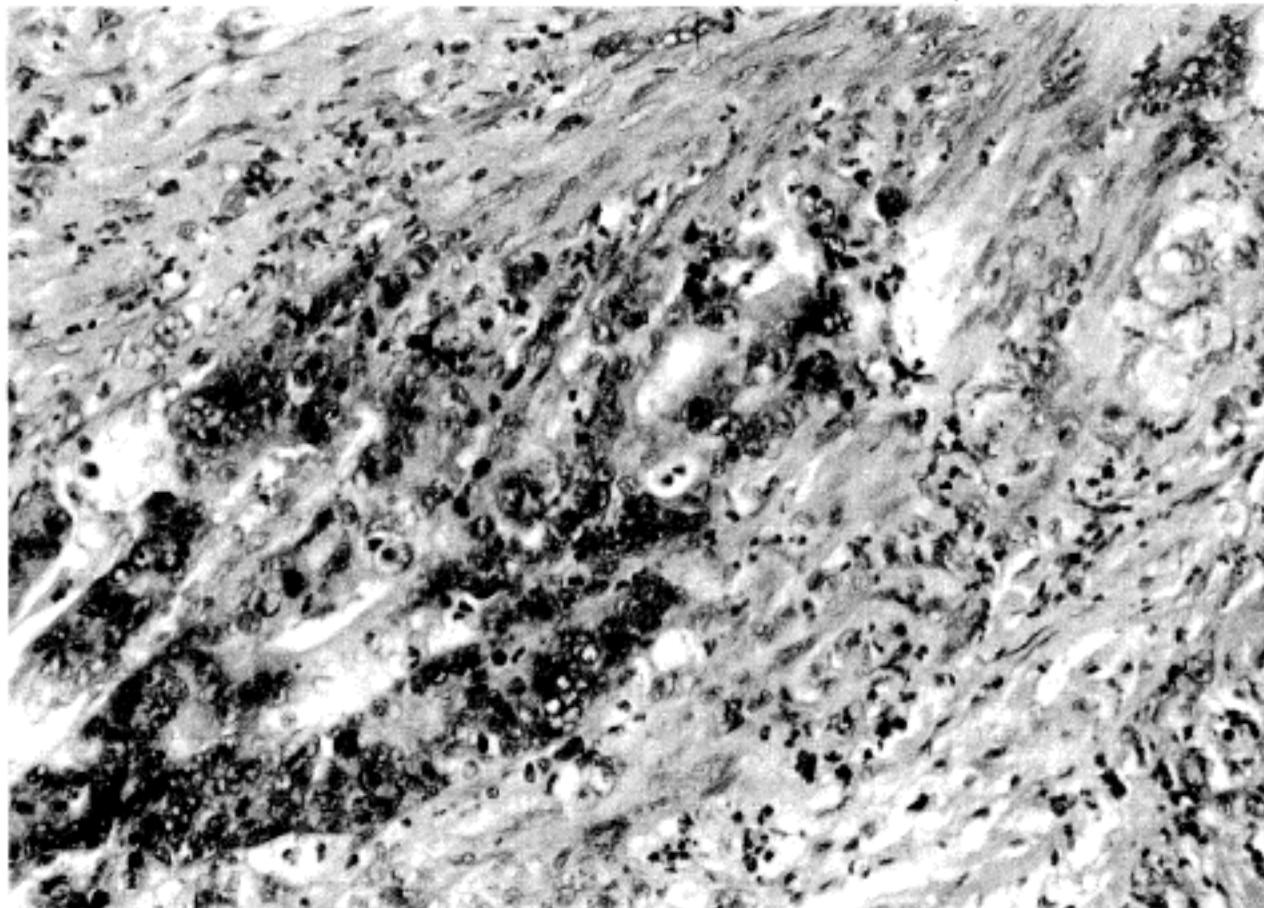


Fig. 4. Tumor glands infiltrate the muscle layer. They are moderately differentiated adenocarcinoma(×100, H&E).

선암은 매우 드문 종양으로서 Rosser등⁴⁾이 1934년에 처음으로 7예를 보고한 이후 현재까지 전세계적으로 약 200예 미만이 문헌상 보고되었으며 대개 한 두예의 증례보고에 불과한 실정이다. 종양은 특징적으로 항문주위농양 혹은 만성치루의 과거력이 있고 직장점막의 침윤은 없으며 조직학적으로 분화가 좋은 세포로 구성되어 있다.

항문선에서 음와염(cryptitis), 치루, 항문주위농양이 기원한다는 점은 널리 알려진 사실이다. 종양의 기원 역시 이 항문선으로 추정되고 있다. 만성치루에서 보이는 만성염증 및 반흔조직에 대한 반응으로 이러한 암종이 발생하는지에 관하여는 논란이 있으나 오래된 상처반흔, 모소동(pilonidal sinus)등 만성염증성 조직에서 악성종양이 발생할 수 있다는 것은 이미 잘 알려진 사실이다⁵⁾. Rollison등⁶⁾은 근위부의 대장암세포가 만성치루로 파종되어 발생한 선암을 보고하였고 항문암의 많은 예에서 이차적으로 치루가 발생되기도 하여 종양이 오래된 치루에서 기원했는지 아니면 종양에서 이차적으로 치루가 발생하였는지를 감별하는 것은 어려움이 많다. Hashimoto등⁷⁾은 직장 점막세포에는 0-acylated sialomucin이 풍부하여 PBT/KOH/PAS에 붉게 염색되며 항문선 세포는 상대적으로 0-acylated sialomucin이 적어 청색으로 염색되어 종양의 기원이 직장점막인지 항문선 인지를 알 수 있다고 하였으나 만성치루와 종양이 복합적으로 나타날 경우 종양의 기원은 여전히 논란의 대상이 되고 있다.

항문주위 점액성 선암의 특징적인 임상증세는 오래된 치루의 과거력이 있으며 대장조영검사상 또는 직장경 검사상 직장점막은 정상이며 배변장애를 동반한 통증이 심한 둔부 종괴를 호소하고 간혹 두명한 점액성 분비물을 호소한다는 점이다. 직장점막암에서 흔히 볼 수 있는 혈변, 배변습관의 변화등의 증상은 흔하지 않으며 종양에 의한 폐쇄, 천공 등은 보고된 예가 거의 없다⁸⁾. 전이가 흔하지는 않지만 만일 전이가 일어나면 주로 서혜부 림프절이다. 본 증례에서도 직장주위의 직장점막은 정상이었고 종양이 치루절제술을 시행한 부위에서 발생 하였으며 수술 후 서혜부 림프절 전이 소견을 보였다.

Onerheim RM등⁹⁾은 치루 과거력이 있으며 항문 부위에 발생한 점액성 선암 환자의 과거에 절제된 치

루 조직을 병리학적으로 재검진한 결과 보통의 치루 조직에서는 보이지 않는 점액물질의 존재를 밝혀냈으며 보통의 다른 치루검체 50예에서는 조직소견상 점액물질 함유는 없었다. 이로써 이들은 치루 검체에서 풍부한 점액물질의 함유가 점액성선암 조기진단의 실마리가 될 수 있다고 하였다. 또한 Getz등¹⁰⁾은 항문주위 농양이나 치루검체에서 조직학적으로 선종성 과증식성변화(hyperplastic adenomatous change)를 보이는 경우 광범위절제등은 필요치 않으나 철저한 추적관찰을 반드시 해야 한다고 했다.

치루에서 발생한 종양의 조직검사시 치루의 외공을 통한 조직검사는 대개 충분한 조직을 얻기 힘들며 둔부종괴가 촉진될 경우 이에 대한 심부조직검사가 진단에 필수적인 경우가 많다. 점액성선암의 경우 특징적인 조직소견은 점막하층에 배상세포(goblet cell)에 의해 둘러싸인 점액성 낭종의 소견이다.

수술적 치료의 선택은 진단시의 종양의 상태, 전이 여부등에 따라 다르지만 국소적인 종양의 절제만으로는 불충분하며 복회음절제술이 표준치료이다. 수술 후 재발부위는 직장이 가장 흔하며 다른 직장암과는 달리 좌골직장과(ischiorectal fossae)를 포함한 광범위한 종괴부의 피부절제를 동반해야 하며 서혜부 림프절이 촉진될 경우 림프절을 절제해야 한다. 직장암에서의 암절제시와는 달리 직장주위의 림프절 광범위 절제술은 불필요하다¹¹⁾. 본 예에서도 모두 복회음 절제술을 시행했으며 첫째에는 절단 원위부에 종양세포 양성이었으며 그후 림프절 및 기타장기 전이로 사망하였으며 두번째 예에서는 근위부, 원위부 절단면에서 모두 종양세포가 음성이었으며 현재까지 재발소견이 없는 것으로 보아 종양세포의 광범위 절제가 예후에 중요한 인자가 될 것으로 생각된다.

치루에서 발생한 선암은 병리학적으로 분화도가 좋은 종양이지만 빈도가 적고 종양의 성장 속도가 느리며 조기에 나타나는 특별한 증상이 없기 때문에 진단이 늦어 대부분에서 치료시에는 종양이 상당히 진행된 경우가 많아 예후가 불량한 경우가 많다. 그러므로 조기진단이 매우 중요하며 치루절제 당시 검체의 암발생을 시사하는 풍부한 점액물질이나 선종성 과증식성의 조직학적 소견을 보일 경우 추적관찰이 필수적이다.

결 론

만성치루에서 발생한 선암은 직장점막에서 발생하는 암과는 임상증상, 조직소견, 예후등에서 다른 병태생리를 보이며 다른 악성종양과 마찬가지로 조기진단이 중요하다. 최근에는 절제된 치루검체에서 점액함유등의 소견으로 암발생을 예측할 수도 있다는 보고도 있지만 이에 대한 계속적인 조직학적 연구가 필요할 것으로 사료된다. 저자들은 오래 경과된 만성치루에서 발생한 선암 2예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Neisen OV, Koch F: *Carcinomas of the anorectal region of extramucosal origin with special reference to the anal ducts. Acta Chir Scand* 139: 299-305, 1973
- 2) Skir I: *Mucinous carcinoma associated with fistulas of long standing. Am J Surg* 75: 85-9, 1948
- 3) Dukes CE, Galvin C: *Ckjolloid carcinoma arising within fistulae in the ano-rectal region. Ann R Coll Surg Engl* 18: 246-61, 1956
- 4) Rosser C: *The relation of fistula in ano to cancer of the anal canal. Trans Am Proctol Soc* 35: 65-71, 1934
- 5) Bowers RF, Young JM: *Carcinoma arising in scars, osteomyelitis, and fistulae. Arch Surg* 80: 564-70, 1960
- 6) Rollison PD, Dundas SAC: *Adenocarcinoma of sigmoid colon seeding into pre-existing fistulae in ano. Br J Surg* 71: 664-665, 1984
- 7) Hashimoto M, Takano M: *A case of minimal-sized adenocarcinoma in a fistula-in-ano. Jr Japanese Surg Soc* 98(8): 861-3, 1992 Aug
- 8) Prioleau PG, Allen MS Jr, Roberts T: *Perianal mucinous adnocarcinoma. Cancer* 39: 1295-9, 1977
- 9) Onerheim RM: *A case of perianal mucinous adenocarcinoma arising in a fistula-in-ano. A clue to the early pathologic diagnosis. Am Jr Clinic Path* 89(6): 809-12, 1988 Jun
- 10) Getz SB, Ough YD, Patterson RB, Kovalcik PJ: *Mucinous adenocarcinoma developing in chronic anal fistula. Dis Colon Rectum* 24: 562-566, 1981
- 11) Rundle FF, Lales IB: *Mucinous carcinoma supervening on fisula-in-ano, its surgical pathology and treatment. Ann Surg* 137: 215-9, 1953