

원장 미부 낭종 1예

가톨릭대학교 대전성모병원 외과, ¹해부병리과, ²진단방사선과

김신선 · 김지연 · 이해경¹ · 황보설² · 김정구 · 이동호 · 유영경 · 안창준

A Case of a Tailgut Cyst

Sin Sun Kim, M.D., Ji Yeon Kim, M.D., Hye Kyung Lee, M.D.¹, Seal Hwangbo, M.D.², Jeong Gu Kim, M.D., Dong Ho Lee, M.D., Young Kyoung You, M.D., Chang Joon Ahn, M.D.

Departments of Surgery, ¹Pathology and ²Radiology, College of Medicine, Daejeon St. Mary's Hospital, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

The tailgut is a blind extension of the hindgut into the tail fold just distal to the cloacal membrane. Remnants of this structure may form a tailgut cyst. This is prone to infection and chronic fistula formation and has a long-term risk of malignancy. Non-recognition and incomplete treatment leads to morbidity. A twenty one year-old female patient visited our hospital with repeated perianal pain and discharge. Pre-operative abdominopelvic MRI and endorectal ultrasonography revealed a retrorectal cyst suggestive of a tailgut cyst. She underwent a complete excision of the retrorectal mass through a presacral approach. She recovered uneventfully. This report includes the case and a brief review of tailgut cysts. *J Korean Soc Coloproctol* 2005;21:105-108

Key Words: Tailgut cyst
원장 미부 낭종

서 론

직장후부(retrorectal space)의 발생학적 원장 미부 낭종(developmental tailgut cyst)은 성인에게는 매우 드문 질환으로 감염, 농양, 또는 누공과 같은 합병증이 생기면 만성적인 직장주위 증상(chronic perirectal symptom)

을 일으키며 드물게 악성 종양이 병발할 수 있어 외과적 완전 절제술이 필요하다. 그러나 본 낭종은 조기 진단이 어렵고, 오진되기 쉬우므로 정확히 치료되지 않은 경우가 빈번하다. 저자들은 항문 주위 동통과 분비물을 주소로 내원한 21세 여자에서 발생한 원장 미부 낭종을 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 윤○라, 여자 21세
주 소: 항문주위 동통과 분비물
병 력: 상기 여환은 내원 4일 전부터 발생한 항문 주위 동통과 분비물, 발열을 주소로 응급실을 내원하여 실시한 경직장 초음파촬영술과 자기공명영상 등에서 직장 후부에 다방성 낭종이 발견되었다.

가족력: 특이 사항 없음.
과거력: 생후 17개월, 14세 두차례 항문주위 농양으로 배농술을 시행 받음.

이학적 소견: 비교적 건강해 보이는 환자였다. 결막 및 공막에 빈혈이나 황달의 소견은 보이지 않았으며 흉부와 복부의 청진 및 촉진에서 특별한 소견은 없었다. 직장 수지 검사에서 과거 수술 흔적과 항문 누공이 있었다. 직장후방으로 종괴가 촉진되었으며, 연질이며 압통이 있었고 고정되어 있었다.

대장내시경: 직장 점막의 이상이나 장관내 종괴는 없었다(Fig. 1).

방사선 소견: 경직장 초음파촬영에서 약 6.0×6.0 cm의 경계가 분명한 저에코 다방성 타원형의 종괴가 후

접수: 2004년 9월 17일, 승인: 2005년 4월 7일
책임저자: 김지연, 301-723, 대전광역시 중구 대흥동 520-2,
가톨릭대학교 대전성모병원 외과
Tel: 042-220-9520, Fax: 042-256-9866
E-mail: jykim@catholic.ac.kr

Received October 17, 2004, Accepted April 7, 2005
Correspondence to: Ji-Yeon Kim, Department of Surgery, Daejeon St' Mary Hospital, College of Medicine, The Catholic University of Korea, 520-2 Daeheung-dong, Jung-gu, Daejeon 301-723, Korea.
Tel: +82-42-220-9520, Fax: +82-42-256-9866
E-mail: jykim@catholic.ac.kr

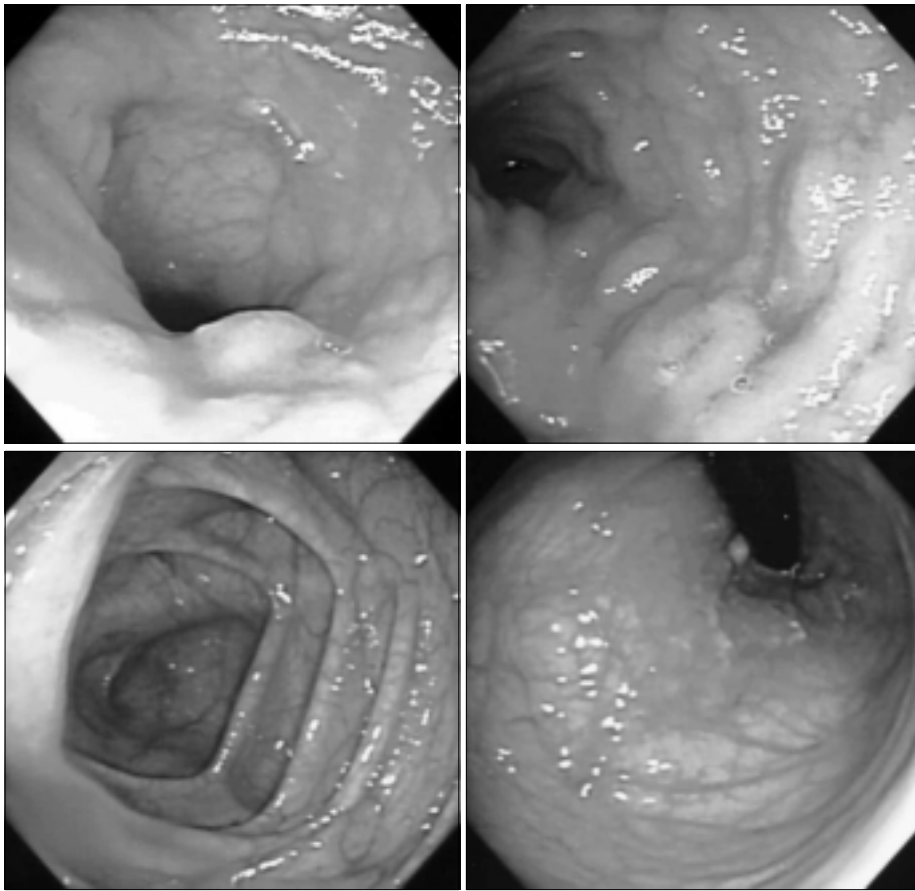


Fig. 1. Colonoscopic finding shows no mucosal lesion or rectal mass. But extraluminal bulging contour is noted on the rectum in J turn view.

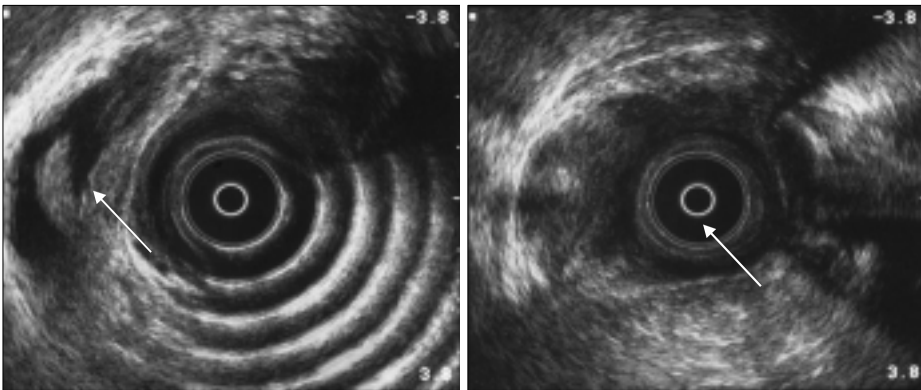


Fig. 2. At endorectal ultrasonography, a cyst appears as a multilocular retrorectal cyst lesion, sometimes with internal echoes due to mucoid material or inflammatory debris.

직장강에서 관찰되었다(Fig. 2). 바륨 조영에서 직장과 교통된 누공은 없었다. 복부 및 골반 자기공명영상에서 직장을 앞쪽과 좌측으로 밀고 있는 얇은 막으로 둘러싸인 6.0×6.5 cm 크기의 다방성의 종괴가 T1 강조영상에서는 저신호 강도를 보이고, T2 강조영상에서는 균질한 고신호 강도를 보이고 있었다. 조영제 주입 후에 조영증강은 되지 않았으며 주변과 경계가 명확하였다(Fig. 3). 항문 왼쪽으로 누공이 의심되는 부위

가 있었다.

검사 소견: 일반적인 혈액, 뇨, 간기능 및 신기능 검사는 정상소견을 보였다.

수술 소견: 전신마취 하에 미추부위에 정중 절개를 가하고 미골을 절제한 후 낭종을 제거하였다. 6.0×6.5×6.0 cm 크기의 종괴가 얇은 막으로 이루어져 있었고 주위조직과 유착이 심하여 박리가 매우 힘들었다. 수술 중 낭종 벽이 파열되었으며 그 내용물은 황색과 녹색이 섞인 걸

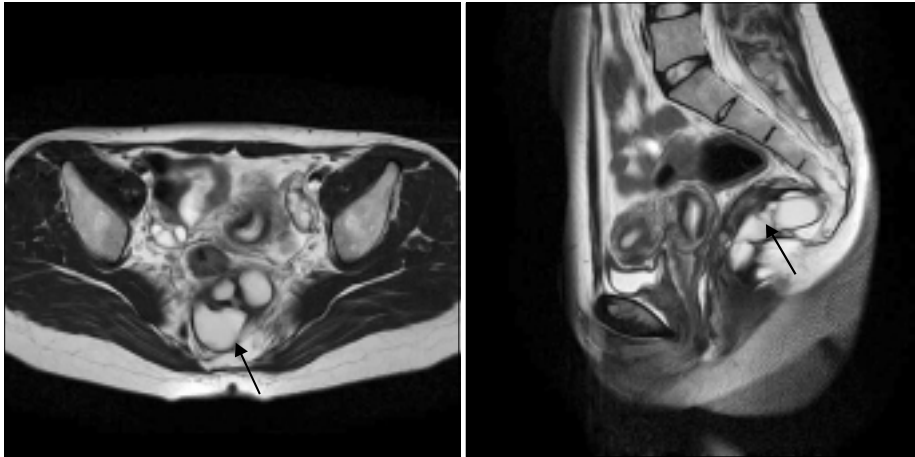


Fig. 3. MRI reveals as well-circumscribed, thin walled, multi-loculated cystic mass in retro-rectal area, showing high signal intensity on T2 weighted axial (A) and sagittal image (B). Small fistular track is seen between tail-gut cyst and posterolateral wall of rectum (arrow).

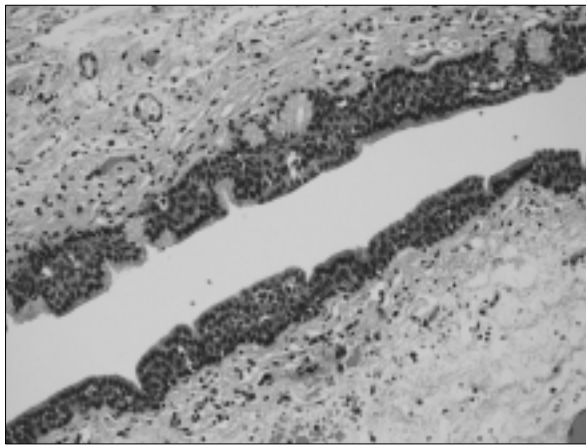


Fig. 4. The lining epithelia of the cyst are composed of benign looking transitional and columnar cells (H&E stain, ×100).

죽한 액체였다. 항문 누공은 완전 절제술을 시행하였다.

병리 소견: 낭종은 다방성이었고 낭벽은 편평상피, 원주 상피, 이행 상피로 구성되어 있으며 낭종 주위에 평활근속이 관찰되었지만 뚜렷한 근육층은 아니며 장막은 관찰되지 않는 전형적인 원장 미부낭종으로 확인되었다. 주위 조직에는 급만성 염증세포의 침윤이 있었다(Fig. 4).

수술 후 경과: 수술 후 14일째 합병증 없이 퇴원하였고 퇴원 6개월 현재 건강하게 지내고 있다.

고 찰

원장 미부낭종은 후직장강내 생기는 극히 드문 낭종의 하나로 초기 발생 시기에 배아가 가지고 있었던 진성미부가 발생 35일째 최고로 발달한 이후 점차 퇴화되어 발생 56일째 거의 소멸되는데, 이것이 퇴화되

지 않고 항문 생성부위의 하부에 남아 있게 되어 생긴다고 한다.¹⁻³ 1885년 Middeldorp에 의해 처음 보고된 이후 수년에 한번 보고되는 정도로 드물다. 후직장 낭종과오종, 원장 미부잔유부, 후항문장낭종 등으로 다양하게 불렸으나 최근에는 발생에 근거하여 원장 미부낭종으로 불리고 있다.² 진단기준은 후직장강 혹은 전천골강내 존재하는 낭종으로 장형 상피세포(편평, 원주, 이행 등을 한가지 혹은 그 이상)를 가지고 있으며 장근신경총이 있는 명확한 근육층이나 장막이 없어야 한다.^{1,2,4,5,11} 낭종이 위치하는 후직장강 혹은 전천골강은 전방의 직장, 후방의 천골, 상방의 복막반전, 하방의 항문거근으로 둘러싸인 공간으로 정의된다.¹ 약 50%에서 우연히 발견되며 남자보다 여자에서 3배 정도 발생빈도가 많다. 이유는 불분명하지만 여성에서 천골이나 골반 부위의 선천성 기형이 많다는 점과 연관이 있을 것으로 생각된다.^{2,4} 거의 모든 연령에서 보고되고 있으나 주로 중년층에서 많이 보고 되고 있다. 원장 미부낭종은 다른 유사병변과의 감별진단이 중요한데 대개 육안적으로는 감별이 어렵다. 중복낭종은 아우엘바하장근신경총을 갖는 근육층을 포함한다는 점이 미부낭종과의 차이점이고, 표피양낭이나 피부양낭은 편평상피세포로만 구성되며 대개 단방성인 것이 미부낭종과 차이점이다.⁶

원장 미부 낭종은 특징적인 증상을 나타내지 않기 때문에 발견이 늦어지거나 건강검진이나 우연한 신체 검사에서 발견되는 경우가 많다.⁷ 증상이 있는 경우 낭종의 범발성 염증 및 종양 압박에 의해서 후복부나 후배부 통증, 배변시 통증, 직장 포만감, 변주 협조, 요로 폐쇄, 발열등이 있을 수 있다. 진단으론 항문수지검사에서 외부성 낭성종괴가 만져질 수 있으며, 항문 후방으로 깔때기 모양의 피부함몰이 있다면 의심해 볼 수

있다. 컴퓨터 단층촬영, 자기 공명영상은 진단과 추적 관찰에 적합하다. 원장 미부 낭종은 컴퓨터 단층 촬영에서 경계가 좋은 다방성의 후직장낭으로 관찰되며, 낭 내부는 다양한 음영으로 보일 수 있다. 낭의 벽은 약간의 조영증강을 보일 수 있으며 조영 증강이 잘 될 경우 염증이 동반되거나 다른 낭성 종양의 가능성을 고려해야 한다. 내부에 조영증강되는 고형 성분이 있거나 주변 조직으로의 침범이 있는 경우는 다른 악성 종양이나 드물게 원장 미부 낭종의 악성 변화의 가능성이 있다.⁸ 대부분 낭종 내에 석회화는 드물고 석회화가 있을 경우 유피낭종이나 기형종의 가능성이 크다. 자기 공명 영상에서 낭종은 T1 강조영상에서 저음영을, T2 강조영상에서 고음영을 보인다. 석회화는 자기 공명 영상에서 관찰하기가 어려워, 석회화를 포함한 종괴의 감별에는 제한적이나 지방억제영상을 이용해 지방을 포함한 종괴의 감별에는 매우 도움이 된다.⁹ 경직장 초음파로도 종괴를 관찰할 수 있고, 특히 동반된 치루를 관찰하는 데 도움이 된다.¹⁰ 그러나 대부분의 예에서는 본 예와 같이 반복되는 직장 주위 증상이나 후배부 통증등에 의해 시행한 술 후 조직 검사에 의해 진단된다.

미장 낭종이 진단되지 않은 상태에서 단순 절개나 생검만 시행한 경우 농양, 감염, 치루 등이 반복적으로 발생할 수 있다. 또한 선암이나 유암종(carcinoid tumor) 발생도 종종 보고되고 있으므로 수술적인 완전 절제술이 필요하다.^{6,9,11,12} 따라서 특별한 원인 없이 반복되는 항문 질환이나 비특이적인 동통이나 요통이 있는 경우 원장 미부 낭종의 가능성을 생각하고 면밀한 신체 검사를 하여야 한다. 완전 절제술을 위한 접근 방법으로 전방 접근과 후방 접근이 있는데 직장수지 검사에서 낭종이 어렵게 촉지되는 상부 후직장강내 낭종은 전방접근법이 좋으며 촉지가 쉬운 하부 후직장강내 낭종은 후방접근법이 완전절제에 더 적절한

술식으로 판단된다.^{2,7,12}

본 증례는 직장 후부 농양이 발생하는 환자에서 원장 미부낭종을 진단하여 후방접근법으로 완전 절제를 시행했던 예를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

1. Caropreso PR, Wengert PA Jr, Milford HE. Tailgut cyst-a rare retrorectal tumor: report of a case and review. *Dis Colon Rectum* 1975;18:597-600.
2. Hjermsstad BM, Helwig EB. Tailgut cyst, Report of 53 cases. *Am J Clin Pathol* 1988;89:139-47.
3. Marco V, Autonell J, Farre J, Fernandez-Layos M, Doncel F. Retrorectal cyst-hamartomas. Report of two cases with adenocarcinoma developing in one. *Am J Surg Pathol* 1982; 6:707-14.
4. Campbell WL, Wolff M. Retrorectal cysts of developmental origin. *Am J Roentgenol Radium Ther Nad Med* 1973;117: 307-13.
5. Pyo DJ. Tailgut cyst (retrorectal cyst hamartoma): case report and review. *Mt Sinai J Med* 1990;57:249-52.
6. 이 헌, 오재환, 조승연, 양달모, 하승연. 미장낭종 2예. *대한대장항문학회지* 2001;17:209-12.
7. 조용필, 김진천, 김영태, 임승철, 박건춘. 후직장천골강내 종양. *대한대장항문학회지* 1995;11:165-72.
8. 정경재, 이영래. 원장미부 낭종에서 생긴 선암. *대한방사선의학회지* 1995;33:399-402.
9. Mouloupoulos LA, Karvouni E, Kehagias D, Dimopoulos MA, Gouliamo SA, Vlahos L. MR imaging of complex tailgut cysts. *Clin Radiol* 1999;54:118-22.
10. Hutton KAR, Benson EA. Case report: tailgut cyst assessment with transrectal ultrasound. *Clin Radiol* 1992;45:288-9.
11. 김정목, 김흥대, 김광연. 직장 및 직장 후방의 종양에 대한 수술적 접근. *대한대장항문학회지* 1996;12:127-36.
12. 안병율, 정춘식, 이동희, 유창식, 이호정, 이문규 등. 원장 미부 낭종 1예. *대한대장항문학회지* 1998;14:617-20.