

천미골 기형종의 병리학적 관찰

서울대학교 의과대학 병리학교실

김 철 우 · 지 제 근

서 론

천미부는 난소와 고환등의 생식선 다음으로 기형종이 많이 발생하는 부위로서 천미골을 중심으로 외부에 돌출하거나 혹은 천미골과 직장사이에서 종괴를 형성하는 기형종양군을 천미골 기형종(sacrococcygeal teratoma)이라 칭한다¹⁾.

천미골 기형종은 40,000의 출생아 중 1명 정도의 빈도²⁾를 보이며 특히 유·소아 연령층에서는 생식선을 포함하고서도 천미부가 가장 흔한 기형종 발생부위임이 보고되고 있다^{3,4)}.

발생기원에 대한 설명으로 비교적 널리 받아들여지고 있는 견해는 초기 배아기에 생식세포가 이주하는 과정에서 천미부에 격리된 세포로부터 3가지 배엽으로 분화된 각 조직들이 생성⁵⁾되고 성숙되어 간다는 것과 초기 배아기에 원시 결절(primitive node)이 차츰 미부로 이동하여 그곳에 격리^{6,7)}되었다가 그로부터 주로 신경의배엽과 중배엽등 2배엽이상의 조직들이 분화되어 종괴를 이룬다는 것 등이다.

병리조직학적 측면에서 보면 이 종양은 일반 생식선의 기형종과 마찬가지로 다양한 정도의 분화도를 보이는 조직상들을 하나의 종양에 같이 지니고 있거나 각종 생식세포 암종이 함께 발생할 소지가 있어 임상분야와 긴밀한 연관이 요구되는 종양이기도 하다⁸⁾.

저자들은 본 종양에 대해 국내 보고예가 드물고⁹⁾ 아직 다수예에 관한 임상 및 병리학적 고찰이 시행되지 않음에 착안하여 최근 6년간 서울대학교 병원에서 경험하였던 예들을 모아 분석하였고 이를 토대로 이 종양의 발생기원에 대하여 추정하여 보았다.

대상 및 방법

1979년부터 1985년 1월까지 6년간 서울대학교 병원에 내원하여 천미골 기형종으로 확진된 21예를 대상으로 하였다.

본 병원 병리과에 보관중인 육안 및 병리조직표본을 재검토하고 환자병력을 통하여 임상소견을 참조하였다. 기형종의 병리학적 진단분류는 AFIP¹⁰⁾분류를 토대로 하였으며 이는 Table 1과 같다.

임상 stage의 구분은 임상기록 및 병리조직 검사를 토대로 하여 stage I은 미골을 포함하여 종괴가 완전히 적출된 예, stage II은 종양의 피막이 완전하지 못하거나 미골이 제거되지 않은 경우 stage III은 진단시 이미 종양이 다른 장기로 전이됨을 확인하거나 주위조직에 종양의 침투가 발견된 예로 하였다¹¹⁾.

종괴의 위치에 따른 분류는 Altman의 분류¹²⁾를 적용하였으며 이는 Table 2와 같다.

결 과

증례들에 대한 분석결과는 Table 3과 같다. 남녀의 발생비는 4:17이고 종양과 동반된 다른 장기의 선천성 기형은 한 예에서도 관찰되지 않았다.

병리조직학적 분류에 의하면 양성·성숙 기형종 15예, 양성 미성숙 기형종 1예, 그리고 악성종양인 난황낭 종양(Yolk sac tumor)이 5예이었다. 임상 stage별로 구분하여 보면 stage I이 15예, stage II가 3예, 그리고 stage III가 3예이고 Altman의 분류에 따르면 type I이 8예, type II가 8예, type III가 4예 그리고 type N가 1예이었다.

1) 성숙 기형종(mature teratoma)

총 15예로서 종양 전체가 성숙된 조직으로만 구성되

Table 1. Teratoma classification(AFIP¹³⁾)

1. BENIGN TERATOMAS:

A. Mature Teratoma:

- Grade 0 (All component tissues appear well differentiated)
- Grade 1 (Occasional microscopic foci contain incompletely differentiated tissues, not exceeding 10 percent of the sampled surface)

B. Immature Teratoma, Benign:

- Grade 2 (Immature tissues make up between 10 and 50 percent of the sample tumor surface)
- Grade 3 (Over half the surface examined is composed of undifferentiated tissue of uncertain metastatic potential. A benign course is still possible)

2. MALIGNANT TERATOMAS:

A. With Areas of Germ Cell Tumor:

- Germinoma(seminoma, dysgerminoma)
- Embryonal carcinoma
- Choriocarcinoma
- Yolk sac tumor
- Mixed(any combination of the above)

B. With Non-germinal Malignant Tumor Pattern:

- Carcinoma
- Sarcoma
- Malignant embryonal tumor
- Mixed

C. Immature Teratoma, Malignant:

- A teratoma that would otherwise be classified as benign immature teratoma, but which subsequently became metastatic

Table 2. Classification of sacrococcygeal tumors (Altman¹⁰⁾)

Type I : Totally external

Type II : Almost completely external

Type III : Almost completely internal

Type IV : Totally internal

경계를 보였다. 종양과 함께 타원형으로 절개된 피부는 부위에 따라 모양이 집단적으로 생겨있거나 주름이 잡혀있는 등 정상피부와 육안적으로 차이를 보이는 예들(증례 2, 12, 14)도 있었다. 절단면 소견상 양성 병변은 크기에 차이는 있지만 모든 예에서 볼 수 있었다. 현미경적 소견상 두가지 배열이상에서 분화된 각종 성숙한 조직상을 관찰할 수 있었다. 특히 모든 예에서 찾아볼 수 있는 공통된 조직소견으로는 신경교(neuroglia) 조직이 불규칙하게 섬을 이루고 그 사이에 수막(meninges)을 닮은 섬유교원질 다발이 뒤섞여 있는 것과 이들과 근접하여 소화기계 상피 혹은 호흡기계 상피세포들로 배열된 양성 구조들이 흩어져 나타남을 볼 수 있었다. 다음으로 자주 관찰되는 조직들은 소화기계 점막 및 근층, 췌장, 상의조직(ependymal tissue), 연골 및 지방 조직등이고 간혹 망막색소가 선구조를 이루며 배열되어 침착된 것도 볼 수 있었다. 증례 11에서는 성숙 기형종으로 수술받은 후 14개월만에 좌측 엉덩이에 7 cm 크기의 종괴가 촉진되었고 방사선 소견상 양측 뼈에 다수의 전이성 결절이 관찰되었는데 혈청 검사상 α -fetoprotein 치가 27,000 ng/ml 로 높은치를 보여 난황낭 암종이 성숙 기형종 제거후 재발된 것으로 임상 진단되었다. 불행히도 조직생검이 이루어지지 않아 조직소견을 참고치 못하였지만 난황낭 암종에 대한 약물치료(Actinomycin) 과정에서 전이성 결절과 엉덩이 부위의 주 종괴의 크기가 차츰 감소함을 보여 난황낭 암종의 가능성을 충분히 짐작케 하는 예이었다.

2) 미성숙 기형종(immature teratoma)

증례 16의 예로 남아이고 생후 닷새만에 수술을 시행하였다. 출생시부터 비교적 가는 stalk 에 의해 종괴가 천미골부위와 연결되어 있었다. 종괴의 크기는 10 cm 에 달하였다. 소낭성 조직이 치밀하게 밀집되어 있고 보다 육질성의 미끈미끈한 절단면을 보였다. 현미경소견상 절반이상이 미성숙 신경외배엽 조직, 성근간엽조직(loose mesenchymal tissue), 그리고 미성숙

어 있다. 크기는 2.5 cm 으로부터 11.5 cm 까지 다양하였다. 남녀의 비는 2 : 13이고 임상 stage 는 증례 2를 제외하고는 모두 stage I 으로 볼 수 있었다. 증례 2에서는 미끈을 종양제거시 적출치 않았는데 현재까지 재발은 없었다. 육안 소견상 stalk 에 의해 천미골부와 연결된 예들과 Altman type I 으로 분류된 예들은 경계가 분명하였지만 type II 로 분류된 7예와 type IV 의 1예는 주변부가 골격근 조직으로 둘러싸여 불규칙한

Table 3. Summary of 21 cases of sacrococcygeal teratoma

Case	Patient Surg. No	Age at operation	Sex	Clinical stage	Local recurrence	Maximum tumor size(cm)	Site of tumor	Histologic components**	Remarks
A. Mature teratoma									
1	S 79~8058	7 ds	F	I	-	6.5	II	Neuroglia, cystic structures without epithelium	Myelodysplasia
2	S 79~8091	4 mos	F	II	-	10	I	Neuroglia, G-I mucosa, resp. mucosa	Coccyx not removed, Hairy skin
3	S 80~6869	10 mos	F	I	-	5	II	Neuroglia, G-I mucosa, pancreas	
4	S 80~8332	4 ds	F	I	-	3	II	G-I mucosa, pancreas, resp. mucosa, choroid plexus, neuroglia, epidermal cyst	Rupture at delivery
5	S 80~10999	3 ds	F	I	-	11.5	I	Neuroglia, retinal pigments, choroid plexus, G-I mucosa	
6	S 81~6456	7 ds	M	I	-	6	I	G-I mucosa, pancreas, resp. tract, choroid plexus, neuroglia	
7	S 81~10824	16 mos	F	I	-	5	I	Neuroglia, G-I mucosa, resp. mucosa	
8	S 82~5960	5 ds	F	I	-	5.5	II	G-I mucosa, Resp. mucosa, pancreas, neuroglia	Digestive tract with muscle coat
9	S 83~4405	7 mos	F	I	-	6	III	Neuroglia, neural pigments, resp. mucosa, G-I mucosa	
10	S 83~5817	1 mo	F	I	-	2.5	I	Neuroglia, G-I mucosa, resp. mucosa	
11	S 83~11304	10 ds	F	I	+	10	II	G-I mucosa, pancreas, neuroglia, choroid plexus, Resp. mucosa	Recur as EST after 14 mos
12	S 83~12592	12 mos	M	I	-	9	I	Neuroglia, choroid plexus, resp. mucosa	Hairy skin
13	S 83~14703	2 ds	F	I	-	9	II	Neuroglia, G-I mucosa	
14	S 84~4575	3 mos	F	I	-	5	I	Neuroglia, G-I mucosa, pancreas	Hairy skin
15	S 85~849	34 yrs	F	I	-	2.5	N	Neuroglia, epidermoid cyst	
B. Immature teratoma, grade III									
16	S 81~315	5 ds	M	I	-	10	I	Immature neuroectoderm, cartilage, G-I mucosa	Immature tissue(over 50%)
C. Endodermal sinus tumor(Yolk sac tumor)									
17	S 79~7552	14 mos	F	III	-	15	III	EST, resp. mucosa, neuroglia G-Imucosa, pancreas	Metastasis to regional lymph node, α FP(+)
18	S 83~3376	3 yrs	F	III	+	12	III	EST, G-I mucosa, epidermoid cyst	Metastasis to lymph node, α FP(+)
19	S 84~3200	13 mos	F	III	-	5	II	EST, pancreas, G-I mucosa, resp. mucosa	Incomplete removal
20	S 84~12333	12 mos	M	II	-	6	III	EST	Recurred lesion α FP(+)
21	S 84~14539	12 mos	F	II	+	4.5	I	EST	Incomplete removal

* Classification cited by Altman **G-I: gastrointestinal Resp.: respiratory EST: endodermal sinus tumor

연골등으로 구성되어있음을 관찰할 수 있었다. 보다 성숙된 조직들로 구성된 부위에서는 신경교 조직, 소화기계 점막 조직등을 볼 수 있었다. Stalk 에 의해 연결되어 있어 골반조직에 침투되지 않아 임상단계로는 stage I 에 해당되며 현재까지 재발이나 다른 장기로의 전이된 징후는 없다.

3) 악성 기형종(난황낭 암종)

총 5예로서 남녀의 비는 1:4이고 진단시의 연령이 12개월에서 36개월까지로 비교적 앞의 두군에 비해 높았다. 종괴의 크기는 4.5 cm 으로부터 12 cm 까지이며 증례 20과 21에서는 종괴가 완전히 적출되지 못하였다. 증례 17, 18, 19의 3예에서는 육안적으로 양성 기형종 부위와 난황낭 암종 부위가 어느정도 구별되었는데 암종 부위가 보다 치밀한 조직으로 구성되어 남성병변이 드물고 점액성이며 간혹 조직괴사나 출혈소가 동반되어 있었다. 현미경 소견상 특징적인 난황낭 암종의 조직상들을 보였고 특히 가유두성(pseudopapillary) 형태와 다난황(polyvitelline) 형태로 구성된 부위가 대부분을 차지하였다. 다섯예 모두에서 다른 유형의 생식세포 암종은 찾을 수 없었다. 암종과 공존하는 성숙기형종 부위를 보면 신경교 조직, 소화기계 점막 조직, 폐장 조직등을 관찰할 수 있고 이들 사이사이에도 악성 세포군이 침윤되어 있음을 관찰할 수 있었다. 증례 18, 19에서는 주위 림프절에서 종양의 전이가 확인되었고 증례 18, 19, 20, 21의 4예에서는 혈청 α FP 치가 상승되어 있음을 보였다. 증례 17에서는 혈청내 α FP 검사를 시행치 못하였다. 증례 20은 생후 5개월경에 외부 병원에서 천미부 종양으로 수술받은 기왕력이 있던 환자로서 수술후 7개월만에 재발하였고 결국 종괴의 완전 적출이 불가능하였다. Altman 분류에 따르면 type II 가 2예 type III 가 3예로서 종괴가 주로 전천미부(presacral area)에 자리하고 있는 것으로 나타났다.

총괄 및 고안

본 증례들을 분석하여 보면 타 보고들과^{3,2,4,8)} 대동소이함을 알 수 있다. 이 종양이 대부분 만기 출산한 소아에서 발견되고 특히 여아에서 70~90%의 빈도를 보이는데 우리 예에서도 역시 성인 발생 예 하나를 제외하면 모두 출생시부터 종괴를 인지할 수 있었고 유소아기에 수술을 시행받았다. 여자는 전체의 81%라는 높은 분포를 보였다.

본 종양이 남자보다 여자에서 특히 호발하는 이유에

대해서는 아직 마땅한 설명이 없다. 양성 종양군 16예 중 성인 1예를 제외하고는 연령이 16개월미만이고 그 중 8예는 1개월미만인데 비해 악성 종양군 5예에서는 12개월부터 36개월사이의 나이를 보여 시기가 지남에 따른 종양의 악성화의 가능성을 시사한다. 또한 증례 17, 18, 19에서 조직 소견상 암종부위 사이에서 성숙 기형종의 조직상을 관찰할 수 있는 점, 난황낭 암종 5예 모두에서 급격한 종괴의 성장을 보인 점등이 상기 사실을 뒷받침한다.

일반적으로 수술시 미골을 제거하는 것이 종양재발을 감소시키는 것으로 알려져 있다. 본 증례들에서는 1예를 제외하고 모든 예에서 종괴 적출시 미골을 함께 적출하였다. 증례 11에서는 미골 적출에도 불구하고 수술후 14개월만에 종괴가 재발하였고 난황낭 암종임이 밝혀졌다. 현미경소견상 몇 예들에서 미골 연골부에 극히 인접하여 확실한 경계가 없이 기형성 조직들이 산재해 있어 미골이 적출되지 않을 때 그로부터 종양의 재발이 있을 가능성을 제시하여 준다(Fig. 5 참조). 본 예들에서 외국 보고예와 차이가 나는 것은 종양이외의 다른 부위에서 특기할만한 선천성 기형을 가진 예가 하나도 없었다는 점이다. Ein¹¹⁾등은 천미부 기형종 예중 18%에서 다른 선천성 기형을 보여 무작위 표본 인구중 선천성 기형을 지닐 수 있는 확률인 2.5%에 비해 월등히 높은 빈도를 나타내고 그 중에서 천미부를 위시한 골 근육계통의 기형이 가장 흔하다고 보고하였다. 척추골 기형이나 골반, 하지등의 기형은 본 종양이 발생하는 시기가 비교적 초기 배아기로 추정되어 상기 부위들의 정상적인 형성 및 성장에 영향을 미칠 것으로 사료된다. 증례 3, 12, 14, 19등 4예에서 종양을 덮은 피부에 굵은 모발이 관찰되는 등 변형된 피부소견을 보이는데 이러한 소견이 척추이분증(spina bifida)이나 척수수막류(myelomeningocele)에서 자주 나타나고 또 이들이 천미부 기형종과 가깝게 동반되는 점에서 서로의 감별진단이나 동반 여부에 유의하여야 된다고 본다. 앞으로 보다 광범위하고 철저한 검진을 거친 다수의 증례가 첨가될 때 이에 대한 명쾌한 해석이 가능해지리라 믿는다.

증례들 중 양성 미성숙 기형종은 1예에 불과하였지만 그 예에서도 미성숙 조직이 주로 신경외배엽으로 구성된 점이 다른 보고들^{4,8)}과 일치한다. Gonzalez⁸⁾등은 미성숙 조직이 간에 전이된 1예를 기술하며 미성숙 기형종이 악성 소질을 나타낼 수 있다고 보고하였다. 또한 미성숙 기형종 grade II 및 grade III로 진단되었던 2예에서는 후에 재발하여 다시 수술하고 검색한

결과 모두 성숙 기형종으로 관찰되어 출생시 충분히 성숙되지 못한 부분이 시기가 지남에 따라 성숙되어갈 수 있음을 제시하였다.

난황낭 암종군에서 Altman 분류의 type III가 많은데 이 경우 병변 발견이 늦어지고 자연히 종양이 악성화할 소지가 많다고 볼 수 있다. 증례 15의 성인에서 발생한 예는 type IV인데 Miles¹²⁾ 등의 보고에서도 성인에서 발생한 11예중 10예가 Altman 분류상 type III와 type IV인 것으로 나타났다. 따라서 종괴가 급속히 성장하지 않으면 특별한 임상증상이 없이 지내다가 여성인 경우 출산시에 곤란을 겪게되어 종양이 있음을 알게되는 예도 흔하다¹³⁾.

본 예들을 병리조직학적으로 재검색하는 과정에서 생식선에서 발생하는 기형종의 조직상과 상이한 몇가지 소견을 관찰할 수 있었다. 첫째, 신경교 조직이 풍부하며 이와 더불어 수막과 유사한 섬유 교원 조직이 자주 나타난다. 둘째, 소화기계 및 호흡기계 조직 특히 그들의 접막이 흔히 관찰되고 췌장 조직의 출현도 빈발하다. 셋째, 피부 및 부속기관, 치아등 외배엽에서 분화되는 조직들은 상대적으로 빈도가 낮다. 넷째, 배세포 종양으로는 융모암(choriocarcinoma), 미분화 배세포종(dysgerminoma), 배아성 암종(embryonal carcinoma) 등의 성분은 거의 없고 난황낭 암종만이 표출된다. 다섯째, 미성숙 조직은 거의 신경외배엽 조직으로 구성된다.

우선 첫째 소견은 이 종양이 부위상 척수의 발달에 영향을 미칠 수 있고 척수수막류등과 밀접한 연관이 있으므로 이해될 수 있다. 난소등에 발생한 기형종에서도 특히 유·소아층에서 발견된 예에서는 신경교 조직이 많은 부위를 차지하나 수막을 닮은 치밀한 교원 조직들에 의해 분획되는 소견은 드물다. 둘째부터 다섯째까지의 소견들은 여러보고들에서도 관찰된 것인데 이를 종합하여 보면 천미골 기형종의 기원세포가 생식선 기형종의 기원세포로 추정되는 원시 배세포(primitive germ cell)에 비해 분화가 진행된 세포로 생각되고 초기 배아기에 주로 신경외배엽과 배아의 내배엽(extraembryonic endoderm)으로 구성된 미부(尾部)의 일부 조직이 함몰되어 있다가 그로부터 기형종이 발생하는 것이 아닌가 추측해 볼 수 있겠다. 소화기계 접막이 많이 출현하고 아울러 췌장조직이 나타나는 것은 난황의 잔재에서 유래한 Meckel 계실등에서 췌장 조직이 동반될 때의 소견에서 유추하여 보면 본 종양의 일부가 배아의 내배엽에서 분화되었을 가능성을 시사하고 배세포 종양중에서도 난황낭 암종만이 발현되

는 것도 Teilum의 실험 보고¹⁴⁾와 연관시켜 보면 종양의 일부가 원시적 난황의 특성을 되찾아 암적 증식을 하게 된 것으로 해석할 수 있다. 초기 배아기에 신경외배엽과 배아의 내배엽만으로 구성된 부위는 두부의 구인두막(oropharyngeal membrane)과 미부의 배설강막(cloacal membrane)이 있고¹⁵⁾ 곧 이 장소들은 심한 접힘(folding)과정(Fig. 1 참조)을 겪게되는데 이 과정도중에 조직의 일부가 함몰되었다가 종양성으로 증식되지 않나 생각한다. 특히 미부에는 원시성 결절(primitive node)의 잔재가 남아 신경외배엽 및 중배엽으로 분화 및 반육을 계속하여 종양의 일부를 형성한다고 생각된다. 만일 접힘 과정을 겪는 부위에서 기형종이 생긴(조직의 함몰) 가능성이 높다면 Fig. 1의 A지점(proximal part of cloacal membrane)이 천미골 기형종의 기원 부위가 되고 B지점(distal part of oropharyngeal membrane)은 인체 부위중 또 하나의 생식선의 기형종의 호발 장소인 종격동의 기원 부

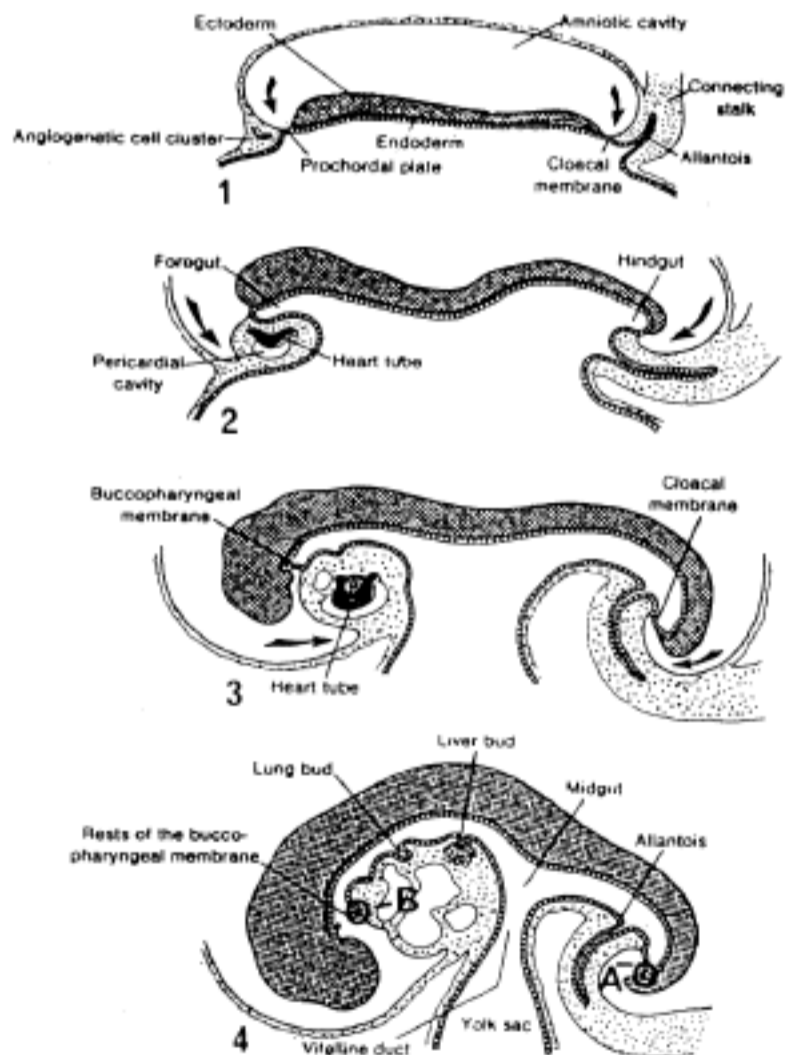


Fig. 1. Drawings of sagittal midline sections of embryos at various stages of development to demonstrate the cephalo-caudal flexion and its effect on the position of the endoderm lined cavity. (Cited from Langman)

위로 추정해 볼 수 있다. 종격동에서 발생하는 기형종에 대해 Berry⁴⁾, 또는 Chretien¹⁶⁾ 등의 보고에 의하면 소화기계 점막 및 체장 조직이 생식선 기형종에 비해 더 자주 관찰된다고 하였다. 비록 종격동 기형종에서는 용모암 등의 예가 보고되고¹⁷⁾ 있어 천미부 기형종과 다른 점을 보이는데 이는 구인두막의 끝부분이 양막(amnionic membrane)과 연결되어 있어 이 부위의 증양은 양막의 원시적 특성을 발현할 수 있지 않나 추정하여 본다. 이와 같은 추정에 대한 논리적 근거로는 Huntington¹⁸⁾ 등이 난황 조직이나 영양아 세포(trophoblast) 조직은 이미 전잠재성(totipotential) 세포가 아니라 어느 일정한 방향으로 분화가 결정된 세포라는 점을 내세워 생식선 이외의 곳에서 발생한 기형종의 기원은 부신경장판(accessory neuroenteric canal)의 결과로 빚어진 방황하는 신경조직 혹은 장관조직의 일부에서 종양성 증식을 일으킨 것이고 어느정도 분화된 anlage로부터 원시적 난황의 특성이 다시 발현된 것이 난황낭 암종이 아닌가 하는 조심스러운 주장을 한 것과 Sobis¹⁹⁾ 등이 난황낭 암종을 실험적으로 일으키는 과정에서 용모암, 배아성암종, 미분화 세포종 등의 형태는 찾을 수 없어 적어도 난황에서 유래한 기형종은 그 기원이나 세포의 조상이 다름을 주장한 것 등이 뒷받침하여 준다고 생각된다.

결 론

1979년부터 1985년 1월까지 서울대학교 병원에서 검색한 천미골 기형종은 총 21예이었다. 이 중 남자는 4예, 여자는 17예로 구성되었다. 양성 성숙 기형종은 15예, 양성 미성숙 기형종은 1예, 그리고 난황낭 암종이 5예이었다. 양성 종양군의 연령층은 성인 1예 이외에는 모두 16개월 미만이었고 악성 종양군은 12개월로부터 36개월까지이었다. 양성 종양군중 1예가 재발하여 난황낭 암종으로 발현되었다. 종양과 더불어 다른 부위에 선천성 기형이 동반된 예는 없었다. 육안적 소견상 거의 전 종양에서 부분적인 낭성 병변을 보이고 난황낭 암종예들에서는 조직괴사와 출혈소들이 관찰되었다. 현미경 소견상 모든 예들에서 예외없이 나타나는 조직은 신경교 조직이었다. 다음으로 소화기계 점막, 호흡기계 점막, 그리고 체장 조직등이 관찰되었다. 난황낭 암종중 3예에서는 양성 성숙 기형종이 부분적으로 혼재되어 있었다.

이상의 소견들을 종합하여 초기 배아시기에 접합과정을 일으키는 배설강막 부위의 신경외배엽과 배아의

내배엽의 조직 일부가 합몰되어 기형종의 발생기원 세포군이 될 가능성을 추정하였다.

REFERENCES

- 1) Gonzalez-Crussi F: *Extragenital teratomas. AFIP Fascicle 18 Armed Forces Institute of Pathology Washington DC, 1982*
- 2) Conklin J, Abell MR: *Germ cell neoplasms of sacrococcygeal region. Cancer 20:2105, 1967*
- 3) Mahour GH, Woolley MM, Trivedi SN, Landing BH: *Teratomas in infancy and childhood: Experience with 81 cases. Surgery 76:309, 1974*
- 4) Berry CL, Keeling J, Hilton C: *Teratomata in infancy and childhood: A review of 91 cases. J Path 98:241, 1969*
- 5) Grosfeld JL, Ballantine TVN, Lowe D, Baehner RL: *Benign and malignant teratomas in children: Analysis of 85 patients. Surgery 80:297, 1976*
- 6) Brown NJ: *Teratomas and yolk-sac tumors. J Clin Pathol 29:1021, 1976*
- 7) Willis RA: *Pathology of tumors. London, Butterworths 1967, p994*
- 8) Gonzalez-Crussi F, Winkler RF, Mirkin OL: *Sacrococcygeal teratomas in infants and children. Arch Pathol Lab Med 102:420, 1978*
- 9) 서광선, 강대영 : 천미골 부위에서 발생한 *Mixed malignant germ cell tumor* 부검 1예 보고. 대한 병리학회지 18:320, 1984
- 10) Altman RP, Randolph JG, Lilly JR: *Sacrococcygeal teratoma: American academy of pediatric surgical section survey 1973. J Pediatr Surg 9:389, 1974*
- 11) Ein SH, Adeyemi SD, Mancer K: *Benign sacrococcygeal teratomas in infants and children. Ann Surg 191:382, 1980*
- 12) Miles RM, Stewart GS: *Sacrococcygeal teratomas in adults. Ann Surg 179:676, 1974*
- 13) Graham DF, McKenzie WE: *Adult pre-sacral teratoma. Postgraduate medical Journal 55: 52, 1979*
- 14) Teilum G: *Endodermal sinus tumors of the*

ovary and testis. *Cancer* 12:1092, 1959

- 15) Langman J: *Medical embryology. 4th edition The Williams and Wilkins company Baltimore 1981, p.65*
- 16) Chretien PB, Milam JD, Foote FW, Miller TR: *Embryonal adenocarcinomas(a type of malignant teratoma) of the sacrococcygeal region. Cancer* 26:522, 1970
- 17) Walden PAM, Woods RL, Fox B, Bagashawe KD: *Primary mediastinal trophoblastic teratomas. Thorax* 32:752, 1977
- 18) Huntington RW, Bullock WK: *Yolk sac tumors of extragonadal origin. Cancer* 25:1368, 1976
- 19) Sobis H, Vandeputte M: *Development of teratomas from displaced visceral yolk sac. Int J Cancer* 13:444, 1974

= Abstract =

Sacrococcygeal Teratoma

—21 cases analysis and speculation
on its pathogenesis—

Chul Woo Kim, M.D. and Je G. Chi, M.D.

Department of Pathology, College of Medicine
Seoul National University, Seoul, Korea

A total of 21 cases of sacrococcygeal teratomas is reviewed and analyzed histopathologically. They were 15 mature teratomas, one immature terato-

mas, and five endodermal sinus tumors. All but one neoplasm occurred in infants aged 3 years or younger and had visible masses at birth. Seventeen of these cases occurred in females.

In mature teratomas, variable teratoid elements were observed and neuroglial tissue was particularly prominent among them. Also found were gastrointestinal mucosa, respiratory mucosa, pancreas, retinal tissue, and cartilage in order of frequency. Only one case of mature teratoma recurred and turned out to be endodermal sinus tumor with metastasis to the lungs.

One immature teratoma showed undifferentiated neuroectodermal tissue in over half of the total area and the remaining portion consisted of mature neuroglial tissue and gastrointestinal mucosa.

All endodermal sinus tumors were not combined with germinomatous or choriocarcinomatous elements. Three cases of endodermal sinus tumor contained mature teratoid components adjacent to the carcinomatous area.

Based on the findings described above, we discussed some different histopathologic characteristics between the sacrococcygeal teratomas and gonadal teratomas, and speculated the possible origin of sacrococcygeal teratoma from the sequestered portion in the proximal part of cloacal membrane. And this sequestration might be occurred during the process of cephalo-caudal folding in early embryonal period.

Legends for Figures

- Fig. 2. Gross specimen of a mature teratoma. Case 14.
- Fig. 3. Gross photo of an endodermal sinus tumor associated with teratoma in case 18.
- Fig. 4. Photomicrograph of a mature teratoma, showing dysplastic covering skin.(H & E, ×40).
- Fig. 5. Photomicrograph of a mature teratoma, showing intestinal epithelia and pancreatic tissue right next to the coccygeal bone.(H & E, ×40).
- Fig. 6. Photomicrograph of a mature teratoma, showing choroid plexus and glial elements.(H & E, ×40).
- Fig. 7. Photomicrograph of a mature teratoma, showing neuroglial tissue intermingled with immature-hair follicle and ependymal tubule.(H & E, ×40).
- Fig. 8. Photomicrograph of a mature teratoma, showing retinal pigments among glandular teratoid elements.(H & E, ×40).
- Fig. 9. Photomicrograph of a mature teratoma, showing pancreatic tissue beneath the colonic type mucosa.(H & E, ×40).
- Fig. 10. Photomicrograph of an immature teratoma, showing scattered microcystic and papillary structures.(H & E, ×40).
- Fig. 11. Photomicrograph of an immature teratoma, showing clusters of immature neuroectodermal tissue.(H & E, ×200).
- Fig. 12. Photomicrograph of an endodermal sinus tumor, showing infiltration of tumor cells with polyvitelline appearance.(H & E, ×40).
- Fig. 13. Photomicrograph of an endodermal sinus tumor, showing pseudopapillary pattern of neoplastic cells.(H & E, ×40).

