대한병리학회지 : 제23권 제 3 호 1989
Kor. J. Path., Vol. 23(3):396 - 401

천미골 기형종에서 발생한 선암종 1예

중앙대학교 의과대학 병리학교실 및 정형외과학교실*

김미경 · 박언섭 · 박용욱 · 송계용 · 이은우*

서 론

천미부에서 발생하는 기형종은 잘 알려져있는 종양으로서 3배엽성 기원의 모든 조직으로 구성되어 있고 각종 성숙된 조직과 미성숙된 조직들을 함유할 수 있는 종양이다. 이종양의 발생기원은 3배엽 기원성 조직으로 분화가 가능한 다기원성 원시적 태생기 생식 세포에서 유래하며 발생빈도는 출생아 40,000명 중 1명의 빈도를 보이며 특히 유소아 연령층에서는 생식선을 포함하고서도 천미부가 가장 흔한 기형종 발생부위로 보고되어 있고[1], 성인에서의 천미골 기형종은 드물며 또 대부분은 양성이며 낭성 구조물로 되어 있으므로[1~4] 악성종양 병소가 병발하는 경우는 더욱 더 희귀하다. 또 악성종양이 발생되더라도 생식세포암이며 대부분은 배아세포암이다[5~9].

국내에서 보고된 천미부 기형종에서 발생된 악성 종양에서도 모두 생식세포에서 유래된 종양이었고[10~13]선암종을 동반한 례는 국내 문헌상 보고를 발견할 수 없었다. 그러므로 저자들은 52세 성인여자 환자에서 선암종을 동반한 천미골 기형종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례 보 고

환자는 52세 여자 환자로 5~6개월 전부터 하복부의 동통을 주소로 내원하였다. 과거력 및 가족력에서는 당뇨병 이외의 특기사항은 없었다. 이학적 소견상 흉부 및 복부에 이상 소견이 없었으며, 직장 검사상 항문 경계부의 3 cm상방에서 비교적 연하며 경계가 명확한 종괴가 촉지되었다. 검사소견상 혈청 α-fetoprotein이 10 ng% 이었고, 혈액검사 및 요검사상에서는 당뇨 이외의 특기

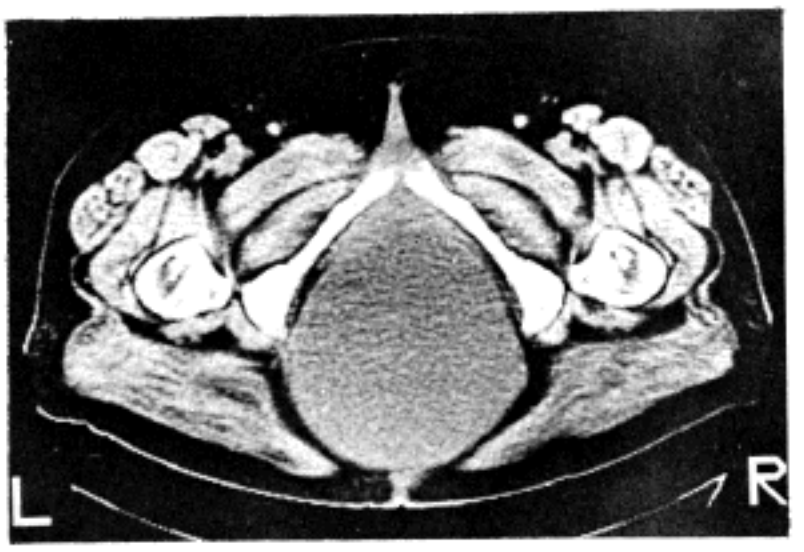

Fig. 1. A large presacral cystic tumor attached to the sacrum in CT scanning.

Fig. 2. Inner surface revealed ragged and irregular thickening of cystic wall.

*본 논문의 요지는 1988년 대한병리학회 제13차 춘계학술대회에서 전시로 발표 되었음.

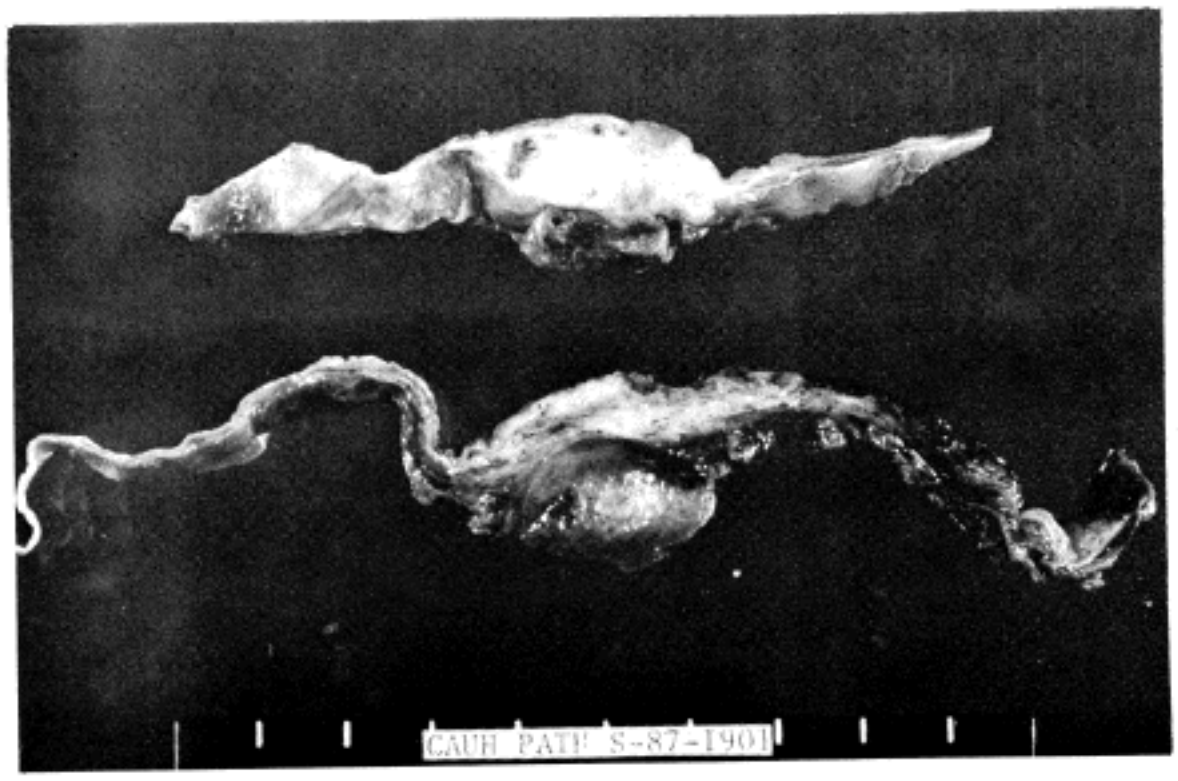

Fig. 3. Cut surface of the tumor revealed grayish white solid area and membranous cystic wall with irregular thickening.

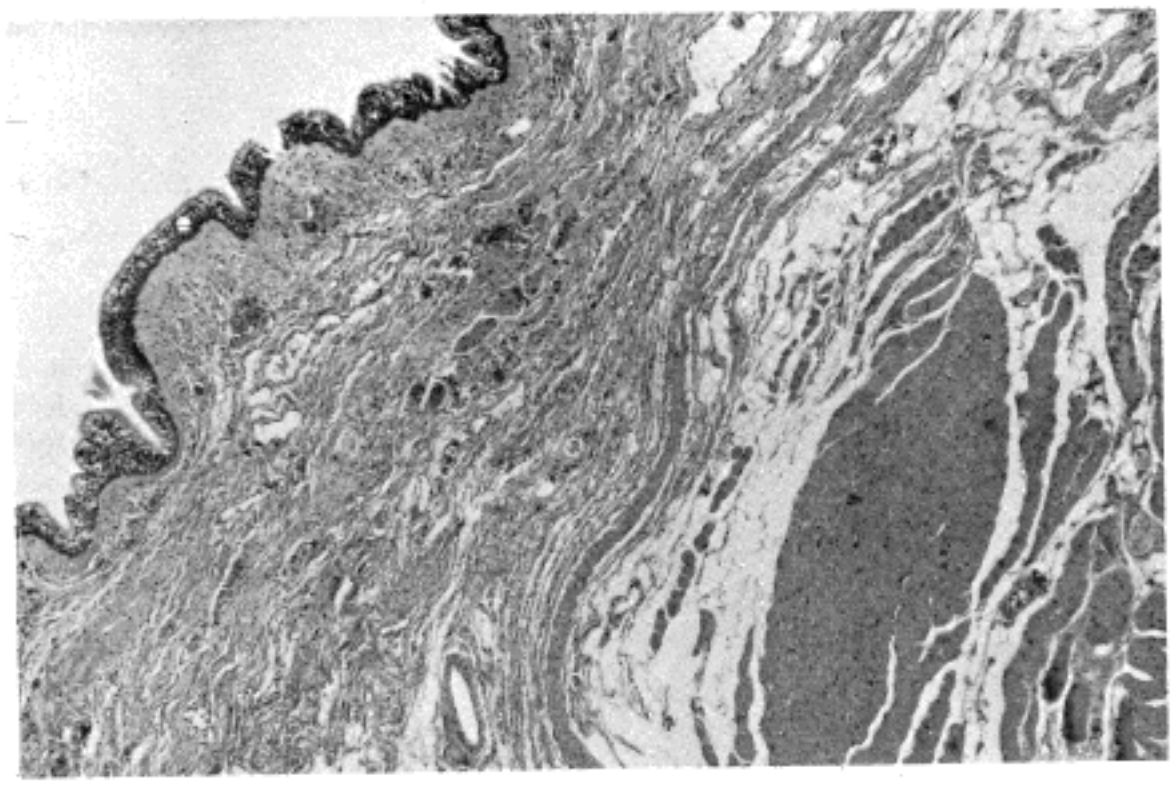

Fig. 4. Respiratory mucosa and skeletal muscles in benign cystic teratomatous area (H & E, x40).

소견이 없었다. 흉부 X선 소견은 정상이었고, 대장의 barium enema소견상 종괴, 궤양은 내부에 없었지만 대장이 오른쪽으로 밀려 있어 대장 밖에 종괴가 있다고 추측되었다. 복부 단층 촬영상 천미골의 앞쪽에 부분적으로 충실성은 커다란 낭성 종괴물이 관찰되었다(Fig. 1). 그래서 기형종이라는 임상진단하에 수술을 하였다. 수술소견상 이종괴는 경계가 명확한 낭성 구조물로서 직장과는 관련성이 없었으나 한쪽면이 천미부에 심하게 유착되어 있었으나 수술상 주변과 종괴는 박리가 용이하여 완전히 모든 종괴를 적출할 수 있었다.

병리조직학적소견상으로는 절제된 종괴의 크기는 11×11 cm이었고 비교적 경계가 명확한 낭성종괴이었으며(Fig. 2) 약간의 골조직도 부착되어 있었다. 절단면상 종괴의 대부분은 암갈색의 액체로 채워져 있는 낭성구조였으며 내면은 울퉁 불퉁하고 거칠었으며 국소적으로는 비후된 낭벽과 충실성의 종양조직이 관찰되었다. 충실성 종괴는 활면상 회백석의 섬유화 배경에 국소적인 괴사와 연황색의 색조가 있었다(Fig. 3). 현미경적소견상 낭성부위는 주로 위중층 원주세포와 편평상피로 피복되어 주로 호흡기 계통조직이 많았으나 피부조직은 없었

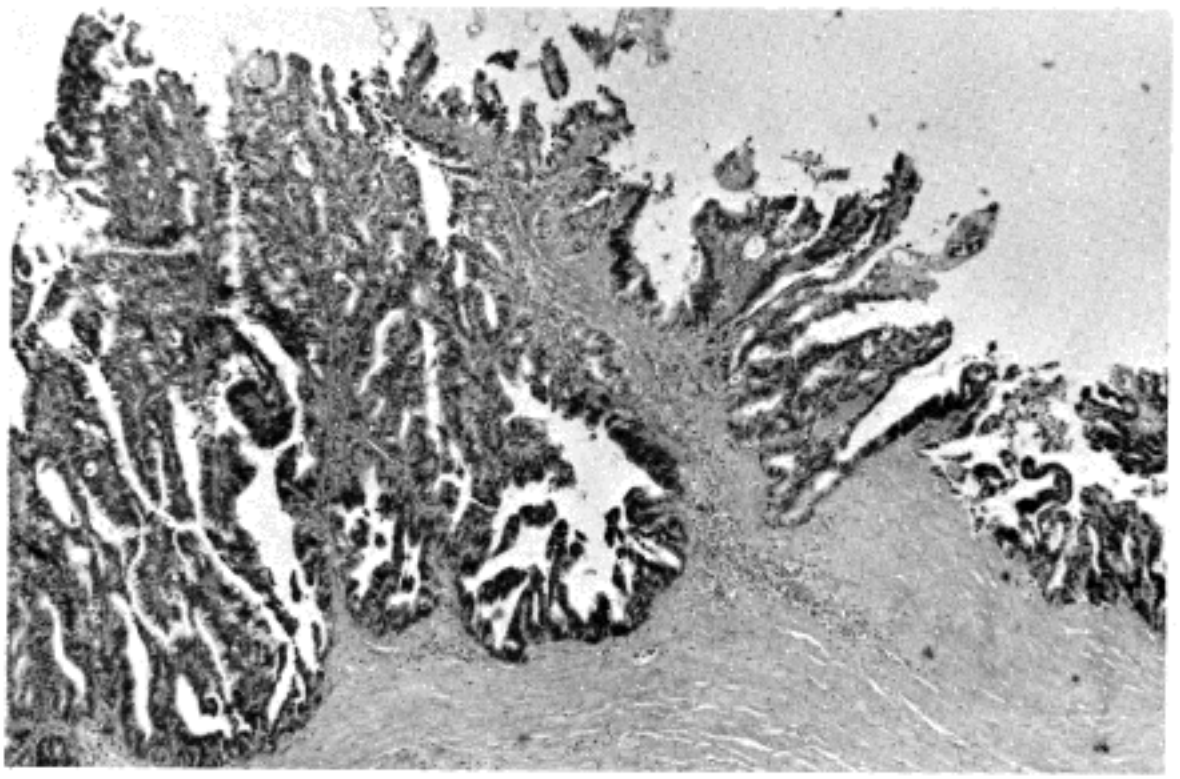

Fig. 5. Atypical papillary proliferation (borderline malignancy) with focal carcinomatous transformation (H&E, x40).

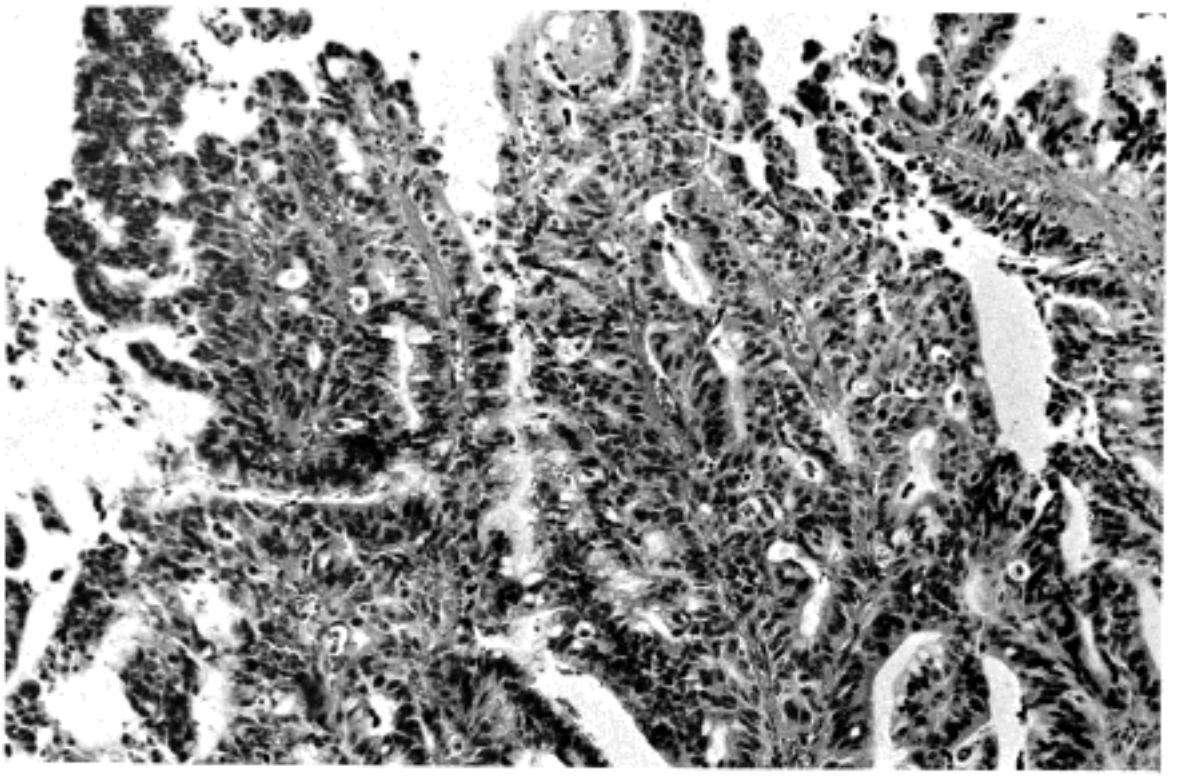

Fig. 6. High power veiw of the Fig. 5. showing focal area of carcinomatous area (H&E, x100).

다. 그 이외에 평활근, 골, 골수 등의 구조물도 관찰되어 기형종임을 쉽게 알 수 있었다(Fig. 4). 비후된 낭벽을 피복하고 있는 상피세포들도 borderline malignancy에 해당하는 부위와 증식을 하며(Fig. 5.6) 간조직으로 침투하는 부위도 동시에 관찰되었다. 충실성종괴로 존재한 부위는 비정형적이며 잘 분화된 선암세포들의 증식과 침윤이 관찰되었으며(Fig. 7) 섬유화와 괴사를 동반하고 있었고 신경 섬유내 침윤도 관찰되었다(Fig. 8). 종괴 절단 경계 부위에는 종양이 없었고 골내 침투도 없어서 모든 종괴가 적출되었다고 생각되었다. 수술 후 재발없이 잘 지내고 있다. 그러므로 본 선암은 전천미부 기형종 낭벽의 원주상피로부터 이형성내지는 borderline malignacy의 과정을 거쳐 침윤성 암으로 이행되었다고 생각되었다.

고 찰

기형종이란 한개 이상의 태아배엽에서 유래된 종양으로 발생부위는 흔히 난소, 고환, 후복막, 종격동등 인체의 중앙부 위치이며 천미부에서는 천미골을 중심으로 외

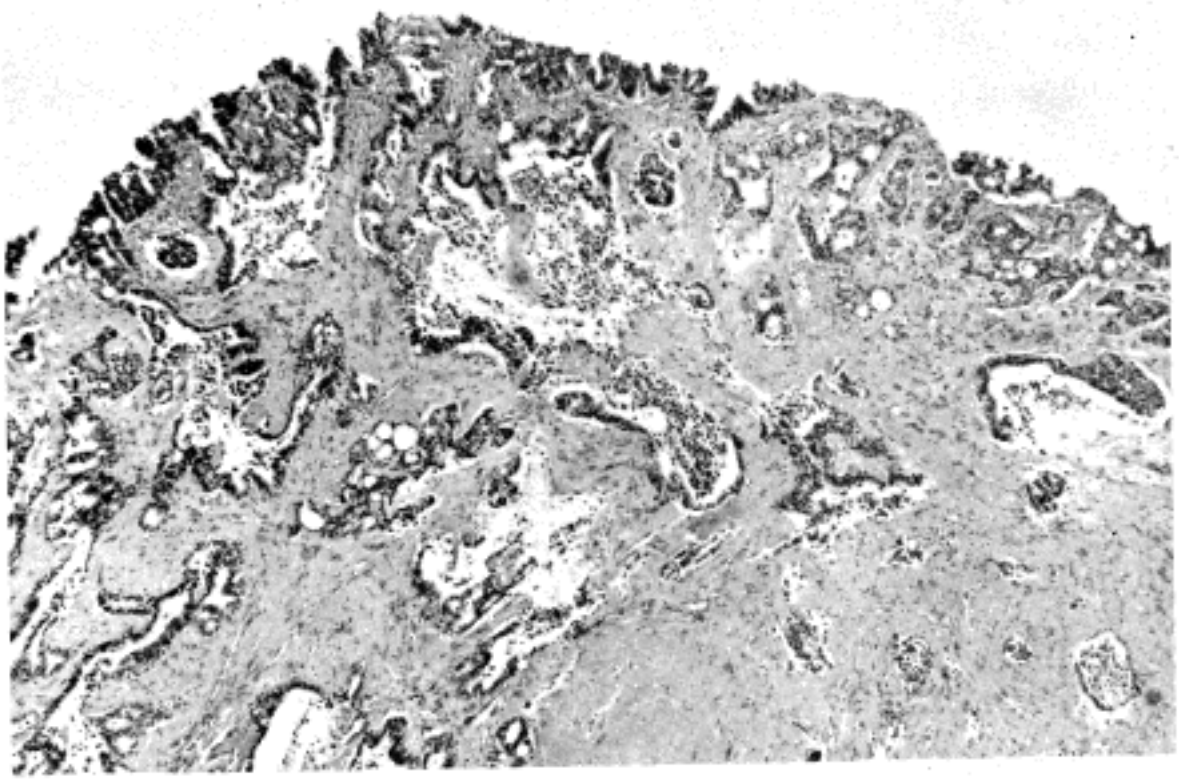

Fig. 7. Sections from solid area revealed invasive adenocarcinoma (H&E, x40).

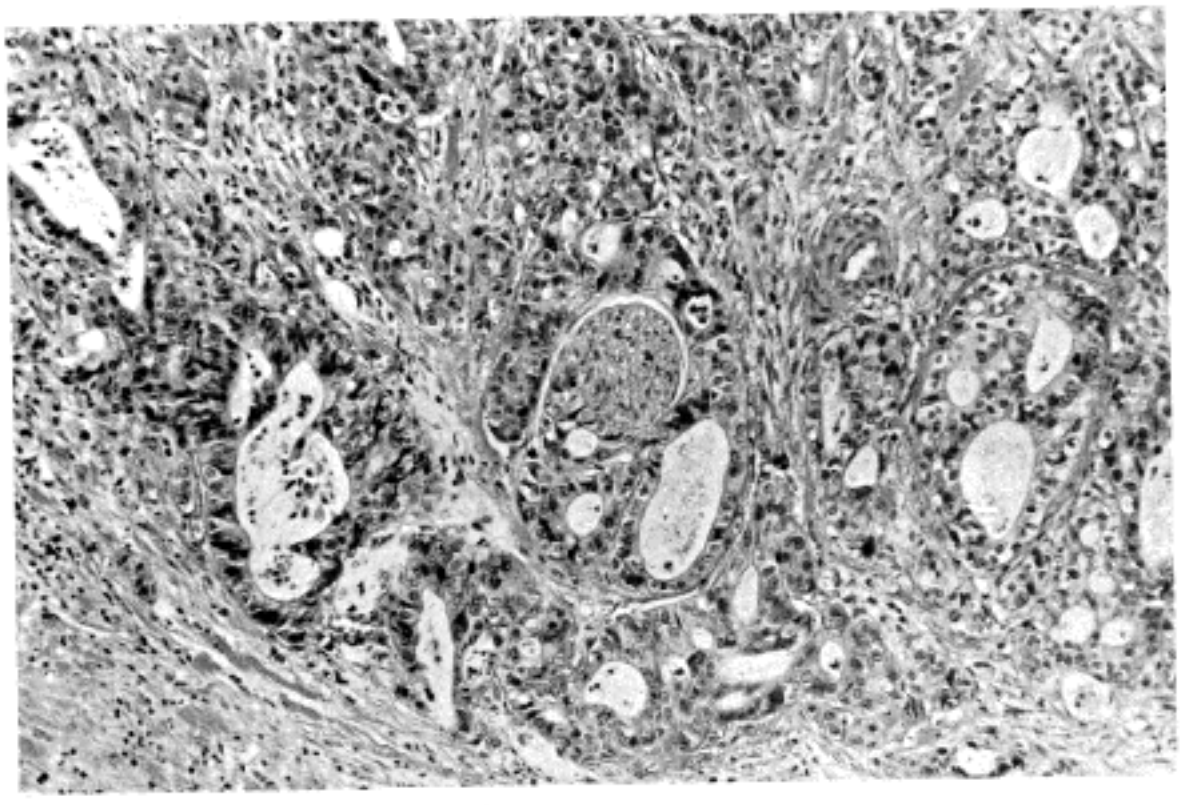

Fig. 8. Area of perineural invasion of well differentiated adenocarcinoma cells in the deep stroma (H&E, x100).

부로 돌출되거나 혹은 천미골의 앞쪽과 직장사이에 종괴를 형성한다[10]. 발생기원에 대한 설명으로는 초기 배아기에 생식세포가 요막강에서 생식선으로 이주하는 과정에서 천미부에 격리된 세포로부터 세가지 배엽으로 분화되어 발생 한다는 것과 초기 배아기에 원시결절(primitive node)이 서서히 미부로 이동하여 그곳에 격리 되었다가 그로부터 2배엽이상의 조직들이 분화되어 종괴를 이룬다고 생각되고 있다[14]. 또한 천미부의 기형종은 여아에서 호발하는데 그 비율은 4배정도 여아에서 많다고 한다. 호발 이유에 대해서는 아직 마땅한 설명이 없지만 태아 개체발생 과정에서 난소와 고환으로 분화하는데 시기적 차이가 기형종 발생에 관련이 있다고 생각되고 있다[4].

천미골 기형종을 가진 소아의 연령이 많으면 많을수록 그 종양은 악성일 가능성이 높은데, 생후 2개월 이하의 유아에서 관찰된 79예의 기형종중 90%가 양성이었고 2개월 이상된 소아의 천미골 기형종 24예중 그중 90%가 악성이었다고 보고하였다. 또한 생후 4개월에서 16세까지 절제된 기형종은 50%에서 악성이었다고 하였다. 따라서 이 종양의 예후 결정은 적출되는 시기와 밀접한 관

계가 있다고 할 수 있다. 천미부의 기형종이 자라나는 양상은 천미부의 앞쪽에서부터 골반쪽으로 자라나가는 전천미부(pre-sacral)형과 천미부의 뒷쪽에서부터 골반강 밖으로 자라나가는 후천미부(post-sacral)형으로 나눌 수 있다. 종양은 종괴의 위치에 따라 I형 에서 IV형으로 나누었다[15]. I형은 가장 흔한 경우로서 골반 밖으로 자라나는 후천미부형으로 대부분이 양성 과정을 거친다. II형은 일부는 골반안으로 자라지만 대부분은 골반 밖으로 자라며, IV형은 전부 골반안으로 자라나는 전천미부형이다. 천미부 기형종중 약 10%미만이 성인에서 발견되는데 대부분이 IV형이며 이는 출생후 발생되었던 것이 미발견 상태에서 성인에서 발견된 경우이다. 본 증례도 여자에서 발생되었으며 종양은 전부 골반안으로 자라는 전천미부형인 IV형에 해당하였고 종괴가 낭성 종양이었으므로 양성으로 시작되었으리라 생각되나 종양이 늦게 발견됨으로 인하여 본 증례에서 관찰되듯이 낭내벽을 피복하고 있는 원주상피가 증식하여 borderline malignancy 를 거쳐 악성종양으로 이행되었다고 생각함이 타당하리라 생각된다.

난소의 낭성 기형에서 악성 종양은 약 2%에서 발생된다고 하며 이들중 편평상피암이 75%이상을 차지하며 그외 표재성암(in situ), 미분화암, 선암육종, 흑색종도 발견되며 40-60세에 호발한다고 보고하였다[16]. 그러나 천미부에서 발생된 암종의 빈도는 대부분이 생식세포의 기원이며 본 증례와 같이 선암종은 극히 드물다. 또한 악성 종양이 동반된 낭성 기형종은 예후가 불량하며 그중에서도 선암이나 육종에서는 편평상피암종 보다 나쁘다고 보고된바 있다[15]. 성인에서 발생한 천미부의 기형종의 증상으로는 동통, 천미부의 배뇨, 방광 복부의 압박등이며 때로는 증상이 없이 제왕절개 수술중 우연히 발견되는 경우도 있다고 한다. 천미부 기형종의 치료는 완전한 외과적 절제가 원칙이며 수술시 천미골을 함께 제거하는 것이 종양의 재발을 감소시킨다고 하였다[7]. 또한 임상적으로 방광이나 내자 기능을 희생시키는 경우라도 정상적으로 보이는 경계부위도 철저히 제거하는 것이 종양의 재발감소에 큰 도움을 준다고 하였다. 이종양의 예후를 보면 양성이고 천미골이 종양과 함께 제거된 경우 완치율이 90%이상으로 기대가 되고, 미골이 절제되지 아니하면 약 33%에서 재발이 일어나고 재발된 종양에서 악성변화가 일어날 수 있다고 한다[3,11].

본 증례는 종양과 천미골 표층이 유착은 되어 있었으며 천미골로 침투되지는 않았으나 종양 조직내에서의 주위 신경내 침투가 관찰되어 예후가 좋지 않으리라 생각되었으나 종괴 자체의 박리가 깨끗하게 되어 아직 수술후 1년이 지나도록 재발없이 지내고 있다.

결 론

저자들은 하복부의 동통을 주소로 내원한 52세의 여자 환자에서 전천미부형의 천미부 기형종에서 발생된 선암종 1예를 경험하고 희귀한 증례로 생각되어 보고하였다.

참 고 문 헌

1) **Berry CL, Keeling J, Hilton C:** *Teratoma in infancy and childhood: a review of 91 cases. J Path 98:241, 1969*
2) **Mahour GH, Woolley MM, Trivedi SN, Landing BH:** *Teratomas in infancy and childhood: Experience with 81 cases. Surgery 76:309, 1974*
3) **Exelby RR:** *Sacrococcygeal teratoma in children. cancer 20:202, 1972*
4) **Waldhausen WA, Kilman JW, Wellios F and Battersby JS:** *Sacrococcygeal teratomas, Surgery 54: 993, 1963*
5) **Chretien PB, Milam JD, Foote FW, Miller TR:** *Embryonal adenocarcinoms (a type of malignant teratoma) of the sacrococcygeal region. Cancer 26: 522, 1970*
6) **Conklin J, Abell MR:** *Germ cell neoplasms of sacrococcygeal region. Cancer 20:2105, 1967*
7) **Miles RM, Stewart SD, Mancerk:** *Benign sacrococcygeal teratoma in adults. Ann Surg 179:676, 1974*
8) **Grosfeld JL, Ballantine TVN, Lowe D, Baehner RL:** *Benign and malignant teratomas in children. Analysis of 85 patients. Surgery 80:297, 1976*
9) **Grosfeld JL, Ballantine TVN, Lowe D, Baehner RL:** *Benign and malignant teratomas in children. Analysis of 85 patients. Surgery 80:297, 1976*
10) **김철우, 지제근** : 천미골 기형종의 병리학적 관찰. 대한병리학회지 *19:67, 1975*
11) **차귀연, 김광연, 강명희, 이중달** : 선천성 천미골 기형종의 생물학적 특성. 고의 *2:197, 1978*
12) **서광신, 강대영** : 천미골 부위에서 발생한 *Mixed malignant germ cell tumor* 부검 *1*예 보고. 대한병리학회지 *18:320, 1984*
13) **김춘규, 허경발** : 천미부 기형종 4예 보고. 한국의약

4:66, 1961

14) **Lemire RJ, Beckwith JB:** *Pathogenesis of congenital tumors and malformations of the sacrococcygeal region. Teratology 25:201, 1982*

15) **Altman RP, Randolph JG, Lilly JR:** *Sacrococcygeal teratoma. American academy of pediatric surgical section survey, J Pediatr Surg 389, 1974*

16) **Scully R:** *Tumors of the ovary and maldeveloped gonads. AFIP Fascicle 16. Armed Forces Institute of Pathology, 262, 1978 Washington DC*

= Abstract =

Adenocarcinoma arising in Sacrococcygeal Teratoma

—A case report—

Mi Kyung Kim, M.D. **Eon Sup Park,** M.D.
Yong Wook Park, M.D., **Kye Young Song,** M.D.
and **Eon Woo Lee*,** M.D.

Dapartment of Pathology and Orthopedic Surgery, College of Medicine, Chung-Ang University, Seoul, Korea*

Authors experienced a rare adenocarcinoma arising in presacral sacrococcygeal teratoma in an adult and herein reported.

The patient was a 52 year old female admitted because of lower abdominal pain for 5 to 6 months. Past and familial history were unremarkable. On rectal examination a mass was palpated 3 cm above the anal verge. The large bowel was displaced by an extrinsic mass but there was no evidence of intrinsic tumor lesion on barium enema, CT was done and showed a large presacral tumor attached to the sacrum. Clinical impression was sacrococcygeal teratoma. Resected tumor mass was a relatively well circumscribed cystic mass, measuring 11×11 cm and the cystic content was previously evacuated. Inner surface showed ragged appearance, and focal nodular solid area was noted. On microscopic examination, the tumor revealed the derivatives of three germ layers and main components were tissues of respiratory tract. Sections from the solid area showed a well differentiated adenocarcinoma and with stromal, capsular and perineural invasion. Borderline malignant epithelial lesions are also noted suggesting the pathogenesis and progression of this tumor. There was no recurrence for one year after surgery in the follow up.

Key Words: Adenocarcinoma, Sacrococcygeal teratoma, Teratocarcinoma