

신생아의 미성숙 위 기형종 1예

동아대학교 의과대학 외과학교실, ¹방사선과학교실 및 ²병리학교실

김민찬 · 박창민 · 이진화¹ · 김대철²

Immature Gastric Teratoma in a Neonate

Min Chan Kim, M.D., Chang Min Park, M.D., Jin Ha Lee, M.D.¹ and Dae Chul Kim, M.D.²

Departments of Surgery, ¹Radiology and ²Pathology, Dong-A University College of Medicine, Busan, Korea

Gastric teratoma (GT) is an exceedingly rare lesion seen most often in male infants, comprising less than 1% of all teratomas in children. A 2-day-old male child was preoperatively diagnosed to have gastric teratoma on ultrasonogram and abdominal computed tomography (CT). On laparotomy, Dumb-bell-shape GT was located on lesser curvature of stomach and complete excision of the tumor was performed. The histological examination revealed immature teratoma of the stomach. The child is well 10 months after surgery. (J Korean Gastric Cancer Assoc 2003;3:158-160)

Key Words: Teratoma, Stomach, Neonate
중심 단어: 기형종, 위, 신생아

서 론

위 기형종은 매우 드문 종양으로 소아에서 생기는 전체 기형종에 약 1%를 차지하며 주로 1세 이하의 남아에서 호 발하고, 종양 내 미성숙한 신경상피 성분이 있다 하더라도 종양의 완전한 절제술로 매우 좋은 예후를 가지는 질환이다.(1)

위 기형종은 현재까지 전 세계적으로 발생 빈도가 매우 적어 대부분 증례 보고 등으로 임상적 특성이 이해되고 있는 질환이며, 국내에서는 2002년 박 등,(2) 2000년 윤 등(3) 그리고 1999년 주 등(4)에 의해 3예만이 보고된 실정이다.

책임저자: 김민찬, 부산광역시 서구 동대산동 3가 1번지
동아대학교 의과대학 외과학교실, 602-715
Tel: 051-240-2596, Fax: 051-247-9316
E-mail: mckim@donga.ac.kr

접수일: 2003년 9월 15일, 게재승인일: 2003년 9월 15일

이에 저자들은 신생아에서 생긴 미성숙 위 기형종 1예를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 생후 2일 된 남아

주 소: 개인 산부인과 병원에서 시행한 산전 초음파상 복부 종괴가 관찰되어 출생 후 정밀 검사 및 치료를 위해 전원되었다. 산모의 조기 양막 파수가 있어 제왕절개술로 출생하였으며 출생 시 몸무게는 3.8 kg였다.

가족력: 환아는 장남이었으며 가족력상 특이 소견 없었다.

현병력 및 이하학적 소견: 복부 진찰 시 중등도의 복부 팽만이 관찰되었고, 상복부 심와부에 직경 6~7 cm 정도의 유동성 종괴가 촉진되었다. 장폐색 증상은 없었다.

검사실 소견: 혈액 검사 상 WBC 22,200/ul, Hb 15.4 g/dl, Hct 44.3%, PLT 359,000/ul, Alb 3.5 g/dl, AST 71U/L, ALT 17U/L, total Bil 4.3 mg/dl, direct Bil 0.1 mg/dl의 특이소견 없었다. α-FP > 84,000 ng/ml (정상치: 20 ng/ml)이었고, β-hCG 7.77 mIU/ml (정상치: 5 mIU/ml)로 증가된 상태였다.

방사선 소견: 복부 초음파 검사(Fig. 1)에서 경계가 불명하

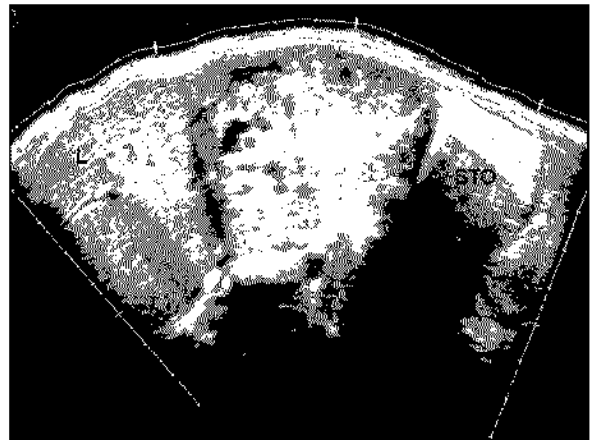


Fig. 1. Transverse sonogram of the upper abdomen demonstrates a well-defined mass in the gastrohepatic space, showing complex echogenicity.

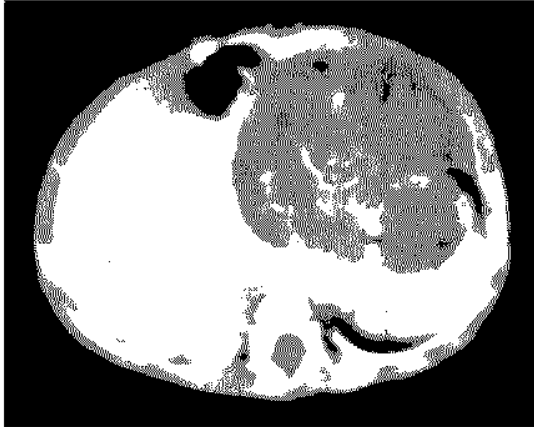


Fig. 2. Contrast-enhanced CT scan depicts a heterogeneously enhancing mass located in both extragastric and intragastric areas.

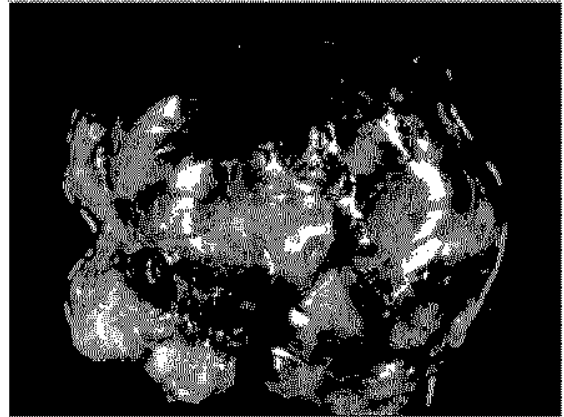


Fig. 4. Gross photograph of the tumor shows irregular, nodular surface with mostly solid component.



Fig. 3. On laparotomy, the mass was located on lesser curvature of stomach.

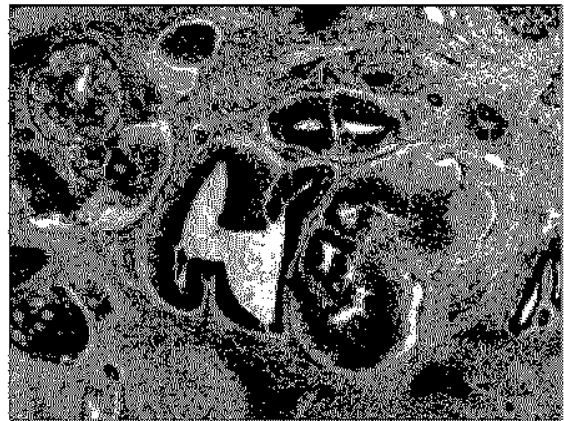


Fig. 5. The section shows immature neuroepithelial elements, small island of immature cartilages, and small cysts lined by columnar cells (H&E, ×200).

며 혼잡에코를 보이는 직경 약 6 cm 크기의 종괴가 위와 간 사이에서 관찰되었고, 복부 전산화단층촬영(Fig. 2)상 이 종괴는 간-위 인대에 주로 위치하고, 일부는 위 내에서도 관찰되었다. 조영 증강 시 조영 증강이 잘 되는 부위와 그렇지 않은 부위가 모두 존재하였으나 석회화나 지방 성분은 관찰되지 않았다.

수술 소견: 제대 위 1 cm 상방에서 좌측으로 치우쳐 10 cm 정도 피부를 절개하였다. 개복 소견은 거의 원형에 가까운 모양의 종괴가 간과 위 사이에 위치해 있었으며, 간과 종괴는 경미한 유착만이 있었고, 종괴는 위 소만 쪽 상부 체부에서 근위 전정부에서 복강 내로 자란 소견이었다(Fig. 3). 종괴와 위의 경계에서 약 2 mm 정도의 여유를 두고 위의 췌기형절제를 시행하였다. 위 내에도 종괴는 연속적으로 존재하여 위벽의 안쪽으로 아령 모양을 하고 있었다. 열

린 위는 소만을 따라 Polydioxanone® (PDS) 5-0을 이용하여 종으로 단속봉합을 시행하였다. 종괴와 함께 소만과 위 소만이 절제됨에 따라 미주 신경의 확인이 되지 않아 유문부 성형술을 함께 시행하였다.

병리학적 소견: 종괴의 육안적 소견은 불규칙하고 결절성의 표면을 하고 있었으며 내부는 대부분 고형 성분이었다(Fig. 4). 현미경적 소견은 미성숙 신경상피성분, 미성숙 연골성분과 크기가 작은 당성성분들이 관찰되었다(Fig. 5).

수술 후 경과: 수술 후 3일째 가스 배출이 되어 식이가 시작되었으며 7일째 경미한 구토가 있어 상부위장관 조형술을 시행하였고 폐색 소견 없이 조형제가 위에서 잘 통과되어 천천히 식이를 진행하였다. 그 후 환아는 CRP치의 증가 등 패혈증 증세를 보여 항생제 치료를 하였으며, 이후 CRP치가 정상화되었고, 약 한달 간의 회복기간을 거쳐 퇴

원하였다. 마지막 α -FP수치는 51.9 ng/ml로 정상 수치에 비하면 증가된 상태이지만, 수술 후 계속하여 감소 추세에 있었다. β -hCG는 0.2 mIU/ml로 정상 소견이었다. 수술 10달째인 현재까지 재발없이 건강하게 외래 경과 관찰 중이다.

고 찰

소아에서 발생하는 기형종은 60~70%가 여자에 발생하고, 호발 장소는 천미골 부위가 반 이상을 차지하며, 후복막 20%, 난소 18%, 고환 5% 그 외 비인두, 간, 췌장, 위 등이 각각 1.6%를 차지하므로 위에서 발생한 기형종은 매우 드문 경우이다.(5)

위 기형종은 1922년 Eusterman and Sentry에 의해 처음 보고된 이래 현재까지 전 세계적으로 약 130예가 보고되었고, 국내에서는 27세 성인에서 1예, 3개월 영아에서 1예, 기형종의 자연 파열에 의한 복막염 1예 등 총 3예가 보고된 바 있으나, 출생 전 산모의 양수 과다로 인한 산전 초음파로 복부 종괴를 발견하고, 출생 후 복부 초음파와 전산화단층촬영으로 진단된 경우는 본 예가 국내에서 처음이다. 발생 연령과 호발 성비는 대부분 1세 이하의 남자이며, 증상은 진단될 당시 환자의 나이와 종양의 크기에 따라 다양하게 복부 종괴, 복부 팽만, 장 폐색, 구토, 상부위장관 출혈 등(1)이 있고, 드물게 호흡 곤란, 자연 파열에 의한 복막염(2)과 거대 종양으로 인한 조산과 dystocia 등(6)이 있다.

술 전 진단으로는 복부 단순 X선 검사와 초음파 및 전산화단층촬영술 등이 있다. 복부 단순 X선 검사는 석회화가 있으면 석회화가 동반된 연부 종괴로 나타나지만 비특이적인 소견이고 초음파와 전산화단층촬영술에는 낭성(cystic) 병변과 고형(solid) 병변을 함께 포함하는 불균질한 종괴로 나타난다. 특히 지방과 석회화 소견이 있으면, 기형종 진단에 큰 도움이 된다. 감별 진단으로는 기타 소아 복부 종양인 신경모세포종, Wilms 종양, 췌장 낭종, 간모세포종, 황문근육종, 지방육종 그리고 후복막 기형종 등이 있다.

육안으로 위 기형종은 낭성병변과 고형병변이 모두 관찰되고, 전체의 65%는 위벽에서 복강 내로 자라는 경우이고, 복강과 위 내로 자라는 경우는 26%, 위 내로만 자라는 경우는 9%이다.(7) 종양 내 뼈와 치아가 존재하면 기형종의 진단에 매우 특징적 소견이라 할 수 있다. 저자들의 예에서는 위 벽에서 복강과 위 내 양측으로 아령 모양의 종괴가 관찰되었고, 뼈와 치아는 발견되지 않았다. 일반적으로 위 기형종은 병리적으로 성숙형과 미성숙형 그리고 악성 3가지로

분류되고, Thurlback 등(8)은 미성숙의 정도를 다시 분류하였다. Tsuchida 등(9)은 위 기형종에서 α Fetoprotein (α -FP)를 조사하였는데, 악성인 경우 75.5%, 양성인 경우 20%에서 높은 수치를 나타내었고, 특히 수술 후 추적 조사 시 재발을 알 수 있는 표지자라 주장하였다. 본 예에서도 술 전 α -FP이 84,000 ng/ml 이상으로 매우 높게 나타났다.

치료는 수술을 이용한 완전 절제술이고 수술 당시 주위 장기의 침범이 있다 하더라도 동반 절제가 가능하다면 위를 비롯한 주위 장기의 합병 절제를 시행함으로써 매우 좋은 예후를 기대할 수 있고, 술 후 항암 치료 및 방사선 치료는 필요 없는 것으로 주장(1)되고 있으며, 위 기형종에서 유발된 위 선암의 보고(10)가 있어 진단 후 즉각적으로 수술이 고려되어야 하는 질환으로 생각한다.

REFERENCES

- Gupta DK, Srinivas M, Dave S, Agarwala S, Bajpai M, Mitra DK. Gastric teratoma in Children *Pediatr Surg Int* 2000;16:329-32.
- Park WH, Choi SO, Kim JI. Congenital gastric teratoma with gastric perforation mimicking meconium peritonitis. *J Pediatr Surg* 2002;37:E11.
- Yoon SE, Goo HW, Jun SY, Lee IC, Yoon CH. Immature gastric teratoma in an infant: case report. *Korean J Radiol* 2000;1:226-228.
- Joo M, Kang YK, Lee HK, Lee HS, Yum HK, Bang SW, Cho HJ. Intrapulmonary and gastric teratoma. *J Korean Med Sci* 1999;14:330-4.
- Lee JI and Jung PM. Teratomas in children. *J Korean Assoc Pediatr Surg*. 1999 Jun 5:1-14.
- Matias IC, Huang YC. Gastric teratoma in infancy. Report of a case and review of world literature. *Ann Surg* 178:631-636.
- Munoz NA, Takehara H, Komi N, Hizawa K. Immature gastric teratoma in an infant. *Acta Paediatr Japon* 1992;34:483-488.
- Thurlbeck WW, Scully RE. Solid teratoma of the ovary: a clinico-pathologic analysis of nine cases. *Cancer* 13:804-814.
- Tsuchida U, Urano Y, Endo Y. A study on alpha fetoprotein and endodermal sinus tumor. *J Pediatr Surg* 10:501-505.
- Matsukuma S, Wada R, Daibou M, Watanabe N, Kuwabara N, Abe H, Suda K. Adenocarcinoma arising from gastric immature teratoma Report of a case in an adult and a review of the literature. *Cancer* 1995;75:2663-8.