

엉치꼬리 기형종에 대한 24년 간의 치료 경험 분석

울산대학교 의과대학 서울아산병원 소아외과학교실
울산대학교 의과대학 강릉아산병원 외과학교실¹
울산대학교 의과대학 서울아산병원 병리과학교실²

공충식 · 김성철 · 김대연 · 김인구¹ · 남궁정만 · 황지희 · 김종재²

서 론

엉치꼬리 기형종은 전체 기형종의 35~60%를 차지하는 신생아에서 가장 흔한 기형종이다. 대부분의 엉치꼬리 기형종을 가진 신생아에서는 종양 존재 이외에 다른 증상이 없다. 하지만, 일부에서는 조산, 고박출심부전(high output cardiac failure), 파종성혈관내응고장애(Disseminated Intravascular Coagulation, DIC), 종양의 파열 혹은 출혈로 집중 치료를 요한다. 출생 시 엉치꼬리 기형종의 악성 가능성은 10% 미만이지만 1년 후에는 악성화 가능성이 75% 이상으로, 가능한 최대한 빠른 시기에 완전 절제가 시행되어야 하며, 재발에 대한 추적 관찰이 필요하다.

이에 본 논문에서는 1989년 5월부터 2013년 4월까지 24년간 서울아산병원에서 엉치

꼬리 기형종으로 치료 받은 환자에 대한 경험을 통해 엉치꼬리 기형종의 성상 및 출산 방법과 연관된 인자를 밝히고 그 예후에 대해 기술하고자 한다.

대상 및 방법

1989년 5월부터 2013년 4월까지 서울아산병원 소아외과에 입원하여 엉치꼬리 부위 종괴로 진단 및 수술 받은 환자의 의무기록을 검토하였으며, 조직검사 상 엉치꼬리 기형종으로 진단된 환자만을 분석대상에 포함하였다. 서울아산병원에서 출산한 45명의 환아와 외부병원에서 출산 후 수술을 위해 외래를 통해 입원한 10명의 환아를 포함하여 총 55명에 대한 후향적 분석을 시행하였다. 각 환자에 대해 성별, 수술 시 나이, 임신주수, 분만형태, 출생 시 산모의 나이, 출생 시 체중, 아프가 점수, 형태학적 분류, 종양의 구성에 따른 분류(낭종성~고형성)¹, 병리조직학적 분류, 조직검사 상 종양의 크기 및 무게, 영상의학적 검사 상 종양의 크기, 수술 시간 및 수술적 접근 방법 등이 조사되었다. 형태학적 분류는 수술 소견 및 영상학

본 연구의 요지는 2013년 6월 21일 포항에서 개최된 제 29회 대한소아외과학회 춘계학술대회에서 구연 되었음.
접수일: 13/8/28 게재승인일: 13/11/21
교신저자: 김성철, 138-736 서울시 송파구 아산병원길 86 울산대학교 의과대학 서울아산병원 외과학교실
Tel : 02)3010-3498, Fax : 02)474-6701
E-mail: sckim@amc.seoul.kr
<http://dx.doi.org/10.13029/jkaps.2013.19.2.81>

적 검사를 기준으로 AAPSS (American Academy of Pediatrics Surgical Section Survey) 분류법²에 따라 분류하였고, 병리학 적 분류는 수술 후 병리 보고에 따랐다. 통계적 분석은 Predictive Analytics SoftWare for windows version 18.0 (PASW)를 사용하여 독립표본 T 검정 및 카이제곱 검정을 시행하였다.

결 과

55명의 환아가 본 연구에 포함되었으며 평균 추적관찰 기간은 $861 \pm 1,050$ 일이었다. 출생 시 산모의 평균 나이는 30 ± 2.7 세였다. 환자의 평균 임신 주수는 36.9 ± 3.6 주로 조산(36주 이하)이 21.8%를 차지하였으며, 몸무게는 평균 3,182 g(970 - 4,340 g)이었고 남녀 비율은 1:2.05 이었다. 1분, 5분 아프가

Table 1. Demographics of the Patients

| | |
|-----------------------------------|-----------------------------|
| Maternal Age (yr) | 30 ± 2.7 (24~36) |
| Gravidity | 1.3 ± 1.3 (0~5) |
| Parity | 0.5 ± 0.6 (0~2) |
| Gestational age at delivery (wks) | 36.9 ± 3.6 (26.3~40.6) |
| Preterm delivery | 12(21.8%) |
| Fullterm delivery | 43(78.2%) |
| Birth weight (g) | 3182 ± 644.1 (970~4340) |
| Apgar score | |
| 1min | 6.7 ± 2.0 (1~9) |
| 5min | 8.3 ± 1.6 (2~10) |
| Male : Female | 1:2.05 |
| Route of delivery | |
| Vaginal delivery | 22(40.0%) |
| Caesarean delivery | 33(60.0%) |

Values are presentated mean \pm SD (range) or number (%)

Table 2. Route of Delivery (Vaginal vs. Cesarean delivery)

| | Vaginal delivery (n=22) | Cesarean delivery (n=33) | P value |
|-----------------------|----------------------------|-----------------------------|---------|
| Maternal Age (yr) | 30.1 ± 1.8 | 29.9 ± 3.2 | 0.817 |
| Gestational Age (wks) | 38.7 ± 1.32 | 35.7 ± 4.17 | 0.002* |
| Birth Wt. (g) | 3273.8 ± 347.8 | 3119.0 ± 785.7 | 0.331 |
| Mass size (cm) | 5.8 ± 2.8 | 8.8 ± 5.2 | 0.029* |
| Mass Wt. (g) | 114.8 ± 218.4 | 352.2 ± 365.9 | 0.029* |
| Mass Wt. / Birth Wt. | 0.03 ± 0.06 | 0.10 ± 0.10 | 0.024* |

Values are presentated mean \pm SD

Statistical significances were tested by Oneway analysis among group

Table 3. Gestational Age and Mass Size ($P<0.001$)

| | M<5 cm | 5 cm≤M<10 cm | 10 cm≤M<15 cm | 15 cm≤M | Total |
|-------------------|-----------|--------------|---------------|---------|------------|
| Preterm delivery | 0 | 4 | 5 | 3 | 12 (22 %) |
| Fullterm delivery | 19 | 20 | 4 | 0 | 43 (78 %) |
| Total | 19 (35 %) | 24 (44 %) | 9 (16 %) | 3 (5 %) | 55 (100 %) |

M; Mass size

Values are presented number (%)

Table 4. Types and Tumor Component and Duration of Operation

| | Predominantly Cystic mass (n=41) | Predominantly Solid mass (n=14) | Duration of operation (min) ($p=0.171$) |
|--|-------------------------------------|---------------------------------------|--|
| Type I (n=14) | 8 | 6 | 116.31 ± 60.53 |
| Type II (n=21) | 16 | 5 | 175.45 ± 118.92 |
| Type III (n=17) | 14 | 3 | 179.94 ± 73.08 |
| Type IV (n=3) | 3 | 0 | 111.00 ± 37.59 |
| Duration of operation (min) ($p=0.143$) | 147.41 ± 77.49 | 191.08 ± 126.43 | |

Values are presented mean ± SD or number

Statistical significances were tested by Oneway analysis among group

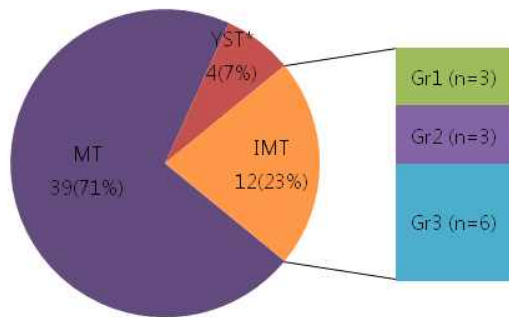
점수는 6.7점 및 8.3점이었으며, 출산 방법은 질식분만과 제왕절개분만이 각각 22명, 그리고 33명 이었다(표 1). 질식분만과 제왕절개 분만 두 군으로 출산 방법을 나누어 비교하였을 때, 산모 나이나 출생 시 체중은 출산 방법과 연관이 없었으나, 임신주수가 짧을수록, 종양의 크기가 크거나 태아 전체 몸무게에 비해 종양이 분율이 클수록 제왕절개분만이 선호됨을 알 수 있었다(표 2). 55명 중 조산은 총 12명으로 약 22%를 차지하였으며, 종양의 크기는 5cm 이상 10cm 미만이 24명(43.6%)으로 가장 많았고, 종양의 크기가 커질수록 조산의 가능성이 유의하게 높았다(표 3). AAPSS 분류에 따른 형태학적 분류는 type I 이 14명, type II가 21명, type III 가 17명, Type IV 가 3명을 차지하였으며, 종양의 구성은 고형성보다는 낭종성이

더 많은 형태를 차지하고 있었다(표 4). 조직학적 검사에서는 성숙기형종(Mature teratoma)이 39명으로 71% 를 차지하였으며 미성숙기형종(Immature teratoma)이 12명(23%), 난황낭종양이 혼합형 3명을 포함하여 총 4명(7%)이었다(그림 1).

술 전 동반되는 장애로는 비뇨기계 증상이 가장 많았으며, 7명의 환자에서 방광 압박 혹은 수신증이 관찰되었으나 술 후 호전되었다.

8명의 환자에서 출생 전 고주파절제(Radio Frequency Abration)를 포함한 태아 중재적 시술을 시행하였다.

수술 시간은 평균 158 ± 93분(30 ~ 551분)이 소요되었으며, 수술 시간은 형태학적 분류 보다는 종양의 크기와 유의한 상관관계($p<0.001$)를 보이고 있었고, 종양의 구성



MT; Mature teratoma, IMT; Immature teratoma, YST; York sac tumor, Gr; Grade
* Three patients with mixed type consisting of YST and mature and immature teratoma are included in this group

Fig. 1. Histological classification

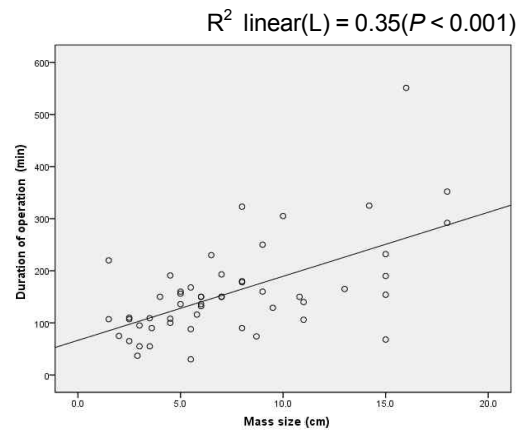


Fig. 2. Duration of operation and Mass size by univariate linear regression analyses

Table 5. Postoperative Morbidity and Mortality Cases of Sacrococcygeal Teratoma Patients

| Morbidity cases | | | | | | | | | | |
|-----------------|--------|------------------|----------|----------|----------------|---------|-----------|------|---------|-----------------------------|
| | Gender | GA (wks) | Delivery | B.Wt (g) | AS (1min/5min) | Mass | | | | Complication |
| | | | | | | Size | Component | Type | Bx. | |
| Patient 1 | M | 38 ⁺² | V/D | 3,038 | 6/9 | 1.5 cm | Cystic | III | MT | Wound infection |
| Patient 2 | F | 39 ⁺¹ | V/D | 3,500 | 8/9 | 4.5 cm | Cystic | IV | MT | Wound infection |
| Patient 3 | M | 37 ⁺⁴ | V/D | 3,472 | 9/9 | 6.5 cm | Cystic | III | MT | Neurogenic bladder |
| Patient 4 | M | 38 ⁺⁴ | V/D | 3,120 | 8/9 | 5.0 cm | Cystic | III | MT | Anorectal fistula |
| Patient 5 | M | 35 ⁺⁶ | C/S | 4,340 | 4/7 | 18.0 cm | Cystic | II | Mixed | Urethra and vaginal injury |
| Patient 6 | F | 35 ⁺² | C/S | 4,010 | 6/8 | 14.2 cm | Cystic | III | IMT Gr1 | Mechanical ileus |
| Patient 7 | F | 37 ⁺² | C/S | 4,010 | 6/8 | 15.0 cm | Cystic | I | IMT Gr3 | Bleeding |
| Mortality cases | | | | | | | | | | |
| | Gender | GA (wks) | Delivery | B.Wt (g) | AS (1min/5min) | Mass | | | | Cause of Death |
| | | | | | | Size | Component | Type | Bx. | |
| Patient A | F | 27 ⁺⁴ | C/S | 1,550 | 2/4 | 13 cm | Solid | I | IMT Gr3 | postpartum bleeding |
| Patient B | F | 32 ⁺² | C/S | 2,860 | 3/6 | 9 cm | Solid | III | Mixed | Intra-op. bleeding > DIC |
| Patient C | F | 34 ⁺⁵ | V/D | 3,630 | 1/2 | 15 cm | Solid | II | IMT Gr3 | mass rupture bleeding > DIC |

GA; Gestational Age, B.Wt; Birth Body Weight, V/D; Vaginal delivery, C/S; Caesarean section, AS; Apgar Score, Bx.; Biopsy (histological classification), IMT; Immature teratoma, MT; Mature teratoma, Gr; Grade, DIC; Disseminated Intravascular Coagulation

Table 6. Recurrence Cases of Sacrococcygeal Teratoma Patients

| | Gender | 1 st op. (day) | Interval (day) | Primary Tumor | | | | AFP elevation at recur. | 2 nd Bx. |
|--------------|--------|------------------------------|-------------------|---------------|-----------|----------|---------|-------------------------------|------------------------|
| | | | | Size | Component | Type | Bx. | | |
| Patient No 1 | M | 3 | 53 | 15.0 cm | Solid | Type I | IMT Gr3 | No | IMT Gr3 |
| Patient No 2 | F | 2 | 280 | 18.0 cm | Solid | Type II | IMT Gr2 | No | MT |
| Patient No 3 | F | 6 | 325 | 15.0 cm | Cystic | Type III | YST* | Yes | MT |
| Patient No 4 | F | 219 | 239 | 5.0 cm | Cystic | Type III | YST | Yes | YST |

1st op. ; Age at 1st operation, Interval; The interval between first and second operation, Bx.; Biopsy(histological classification), 2nd Bx; The biopsy result of recurred tumor, MT; Mature teratoma, IMT; Immature teratoma, YST; York sac tumor, Gr; Grade

* IMT Gr3 40 %, MT 50 %, YST < 10 %

성분과는 연관이 없었다(표 4, 그림 2).

수술 후 합병증으로는 상처감염(2명), 신경성방광(1명), 항문직장누공(1명), 요도 및 질손상(1명), 기계적 장폐색(1명), 출혈(4명) 등이 있었다. 상처감염으로 항생제 치료 및 상처교정술을 각 1명에서 시행하였고, 항문 직장누공으로 루프 회장조루술(loop ileostomy)이 1명에서 시행되었다. 요도 및 질 손상이 발생했던 환아는 수술 시 1차 봉합 및 방광조루술(cystostomy)을 바로 시행하고 1개월간 폴리도뇨관 유지 및 제거 후 호전되었다. 기계적 장폐색 환자 중 1명은 소장 절제 및 문합이 필요하였다(표 5). 대부분의 환아에 대해 수술 시 후방 접근법이 시행되었으나 3명의 환아에서 추가적으로 복부절개를 통한 전방 접근이 병행되었다. 3명의 환아 모두 형태학적 분류 상 Type III 였으며 종양의 크기는 8~17cm 이었다.

사망은 총 3명으로 전체의 5.5%를 차지하였다. 모두 조산이었고 출혈 및 이에 연관된 합병증으로 사망하였다.

엉치꼬리 기형종 환자의 1분/5분 평균 아프가 점수가 6.7/8.3점임을 고려 할 때 사망한 환아에서는 평균보다 낮은 아프가 점수를 보이고 있다. 첫 번째 환아는 종양크기 13cm 고형성 type I 엉치꼬리 기형종으로 제왕절개분만 시행 후 출혈이 조절 되지 않아 수술 시행치 못하고 사망하였으며, 두 번째 환아는 9cm 고형성 type III 엉치꼬리 기형종으로 제왕절개 분만으로 출산 후 수술 시행하였으나, 수술 중 발생한 대량 출혈 및 수술 후 출혈로 파종성혈관내응고증후군(DIC)에 빠지면서 사망하였다. 세 번째 환아는 15cm 고형성 type II 엉치꼬리 기형종으로 질식분만 후 종양 파열에 의한 출혈이 있었으며, 심폐소생술 시행 후 응급수술 시행하였으나 출혈 조절 되지 아니하고 파종성혈관내응고증후군으로 사망하였다(표 5).

재발은 총 4례였다. 첫 번째 수술에서 두 번째 수술까지 걸린 시간은 2개월에서 1년 사이였다. 재발 후 조직검사 소견은 성숙기형종, 미성숙기형종, 난황낭종양 등 다양한

형태를 보였고 난황낭종양 1예와 난황낭종양이 포함된 혼합형 1예에서 재발에 따른 알파태아단백(Alpha Fetoprotein, AFP)의 증가 소견이 보였다(표 6).

알파태아단백은 술 전 평균 $87,928 \pm 78,725$ ng/ml(7-407,000 ng/ml), 수술 3개월 후 평균 270.73 ± 454 ng/ml(2-1660 ng/ml)의 값을 보여주고 있으며, 10 ng/ml 이하로 떨어지는데 수술 후 평균 11.97 ± 4.62 개월, 최소 3개월에서 최대 25개월이 소요되었다.

고 찰

엉치꼬리 기형종(Sacroccygeal teratoma, SCT)은 원시생식세포(primordial germ cell)를 그 기원으로 하는 생식세포종(Germ Cell Tumor)의 약 40%를 차지하는 가장 흔한 소아 종양으로, 생식세포종은 엉치꼬리, 후복막, 종격동, 목, 송과선 등 어디에서든 발견될 수 있다. 특히 생식세포종은 엉치꼬리와 후복막에서 가장 많이 호발하며³, 이 중 엉치꼬리는 난황낭종양(yolk sac tumor, YST)으로부터 기원하는 악성화 가능성이 가장 높은 부위이기도 하다⁴. 엉치꼬리 기형종의 발생률은 27,000 출산 중 1명 정도로 보고되고 있으며⁵, 산전에 진단되어 분만 후 생존한 태아와 산 후 진단되어 수술을 받은 태아의 경우 그 예후는 좋은 것으로 알려져 있으나, 종양의 고형성분(solid component)으로 혈류량이 증가함에 따라 고박출심부전을 유발하거나, 출산 중 종양의 파열로 인한 대량출혈이 원인이 되어 사망에 이르는 경우 또한 7~22%⁶⁻⁸를 차지한다고 알려진 바 있다. 이에 산전 및 산후 진단과 적절한

수술적 처치가 엉치꼬리 기형종 환자의 예후에 중요한 영향을 끼친다고 할 수 있다.

1980년 후반까지 엉치꼬리 기형종의 산전 진단률은 매우 낮았으나(11%) 1998년 이후에는 50% 이상이 산전에 엉치꼬리 기형종으로 진단되었으며⁹, 이는 정기적인 초음파 진료의 증가에 따른 것으로 보인다¹⁰. 산전 진단은 산전 태아에 대한 중재적 시술을 가능하게 하였고, 또한 3차 병원에서 출산 및 소아외과 협의진료와 수술을 사전에 계획하여 그 예후를 좋게 하는데 도움이 되고 있다.

본 연구는 단일 3차 의료 센터에서 치험한 엉치꼬리 기형종 환자에 대한 분석이다. 남녀비에서 여아의 비율이 남아에 비해 두 배 정도 높았고, 성숙기형종이 70%를 차지하여 가장 많은 형태를 보였으며, 낭종성 형태가 고형성 형태보다 많았다. 사망은 3명으로 5.5%의 사망률을 보여주며, 재발률은 4명으로 7.2%를 차지하여 이전 보고된 7~22%⁶⁻⁸와 비슷한 수치를 보였다.

임신 주수가 짧을수록 제왕절개분만의 비율이 높았으며($p=0.002$), 종양의 크기가 클수록($p=0.029$), 그리고 환아의 체중에 대한 종양의 무게 비율이 클수록 제왕절개분만이 선호되었다($p=0.024$). 하지만 본 연구에서 산모의 나이는 분만형태에 영향을 주지 않았다($p=0.817$).

최근 논문에 의하면, 태아의 머리 크기와 같은 고형성 종양은 태아 혈액의 약 20%를 차지하게 되며¹¹, 이는 엉치꼬리 기형종에서 태아 몸무게에 대한 종양의 부피 비율, 특히 고형성 종양의 부피 비율이 고심박출상태 및 태아수종 및 그 예후에 영향을 끼친다고

보고된 바 있다. Coleman 등¹²은 엉치꼬리 기형종과 함께 고심박출상태가 동반되거나 태아수종이 동반될 때 환아들 중 각각 33%와 75%가 사망하였다고 하였으며, 태아 추정 몸무게(Estimated fetal weight)에 대한 종양 전체 부피 분율이 0.16 이상인 경우 고심박출 및 태아수종이 생길 가능성이 17배 더 높고, 특히 고형성 종양 분율은 0.09 이상인 경우 120배 가까이 가능성이 증가함을 보고하였다. 마찬가지로 Shue 등¹³도 태아 몸무게에 대한 종양의 부피 분율이 0.12 이상인 경우와 종양의 고형성 부분이 많을수록 그 예후가 좋지 않았음을 보고하였다. 본 연구에서도 태아의 몸무게에 대한 종양의 무게 분율이 클수록 제왕절개 분만이 유의하게 많았으며, 9cm 이상 고형성 엉치꼬리 기형종을 가진 조산 환아 중 3명이 출혈과 연관되어 사망하였다. 이 중 한 명은 분만 후 종양의 파열에 의한 출혈임을 고려 할 때 종양의 크기가 큰 고형성 엉치꼬리 기형종을 가진 조산아에 대하여서는 제왕절개분만 및 수술 전 후 적극적인 출혈 조절이 중요함을 확인 할 수 있었다.

연속적인 알파태아단백의 추적관찰은 난황낭종양과 연관된 경우에 재발에 의미가 있다고 하였으나¹⁴ 본 연구에서는 재발 시 알파태아단백의 증가를 보인 경우는 4명 중 2명이었고 나머지 2명은 자기공명영상(Magnetic resonance imaging, MRI) 및 신체검진을 통해 재발을 발견하였다. 그러나, 문헌에 의하면 재발 환자의 약 50~80%에서 난황낭종양으로의 재발이 보고되고 있어^{15,16} 엉치꼬리 기형종 수술 후 알파태아단백의 추적관찰은 여전히 중요하다 할 것이다.

재발로 인해 재수술이 시행된 시점이 53일~325일인 것과, 알파태아단백이 10 이하로 떨어지는데 평균 11.97개월, 최대 25개월이 소요됨을 볼 때, 엉치꼬리 기형종으로 수술 받은 환자에 대해 자기공명영상 및 알파태아단백을 포함한 정기적인 추적관찰이 중요하다 할 것이다.

결 론

본 연구에서는 재발 및 사망환자의 수가 적어 이에 대한 예후인자를 분석하기에는 한계를 가진다. 그러나 24년간 단일 센터에서 얻어진 55명 엉치꼬리 기형종 환자에 대한 연구를 통해 임신 주수가 짧거나 종양의 크기 혹은 환아 체중에 대한 종양의 크기나 무게가 클수록 제왕절개분만이 선호되고 있음을 알 수 있었으며, 또한 크기가 큰 고형성 종양을 가진 3명의 환아가 출혈과 연관하여 사망하였음을 확인하였다. 이에 크기가 큰 고형성 엉치꼬리 기형종, 특히 태아 몸무게에 비해 그 분율이 큰 엉치꼬리 기형종일수록 제왕절개분만을 고려해야 할 것이며, 출혈에 대한 출산 및 수술 전 후 적극적인 처치가 그 예후를 좋게 할 수 있을 것이다. 또한 엉치꼬리 기형종의 성상을 고려하여 최소 2년간의 지속적이고 장기적인 재발에 대한 추적관찰이 필요하다고 할 수 있다.

참 고 문 헌

1. Usui N, Kitano Y, Sago H, et al.: Outcomes of prenatally diagnosed sacrococcygeal teratomas: the results of a

- Japanese nationwide survey.* J Pediatr Surg 47(3):441-7, 2012
2. Altman RP, Randolph JG, Lilly JR. Sacrococcygeal teratoma: *American Academy of Pediatrics Surgical Section Survey.* J Pediatr Surg 1974;9(3):389-98, 1973
3. Ho KO, Soundappan SV, Walker K, Badawi N. Sacrococcygeal teratoma: *the 13-year experience of a tertiary paediatric centre.* J Paediatr Child Health 47(5):287-91, 2011
4. Isaacs Jr H.: *Perinatal (fetal and neonatal) germ cell tumors.* Journal of Pediatric Surgery 39(7):1003-13, 2004
5. Swamy R, Embleton N, Hale J.: *Sacrococcygeal teratoma over two decades: Birth prevalence, prenatal diagnosis and clinical outcomes.* Prenatal Diagnosis 28(11):1048-51, 2008
6. Dewan PA, Davidson PM, Campbell PE, Tiedemann K, Jones PG.: *Sacrococcygeal teratoma: has chemotherapy improved survival?* J Pediatr Surg 22(3):274-7, 1987
7. Bilik R, Shandling B, Pope M, Thorner P, Weitzman S, Ein SH.: *Malignant benign neonatal sacrococcygeal teratoma.* J Pediatr Surg 28(9):1158-60, 1993
8. Huddart SN, Mann JR, Robinson K, et al. Sacrococcygeal teratomas: *the UK Children's Cancer Study Group's experience. I. Neonatal.* Pediatr Surg Int 19(1-2):47-51, 2003
9. Gabra HO, Jesudason EC, McDowell HP, Pizer BL, Losty PD.: *Sacrococcygeal teratoma—a 25-year experience in a UK regional center.* Journal of Pediatric Surgery 41(9):1513-6, 2006
10. Graf JL, Albanese CT.: *Fetal Sacrococcygeal Teratoma.* World J Surg 27(1):84-6, 2003
11. Sy ED, Filly RA, Cheong M-L, et al. : *Prognostic Role of Tumor-Head Volume Ratio in Fetal Sacrococcygeal Teratoma.* Fetal Diagnosis and Therapy 26(2):75-80, 2009
12. Coleman A, Kline-Fath B, Keswani S, Lim F-Y.: *Prenatal solid tumor volume index: novel prenatal predictor of adverse outcome in sacrococcygeal teratoma.* J Surg Res 184(1):330-6, 2013
13. Shue E, Bolouri M, Jelin EB, et al.: *Tumor metrics and morphology predict poor prognosis in prenatally diagnosed sacrococcygeal teratoma: A 25-year experience at a single institution.* J Pediatr Surg 48(6):1225-31, 2013
14. Lahdenne P, Heikinheimo M.: *Clinical use of tumor markers in childhood malignancies.* Annals of Medicine 34(5):316-23, 2002
15. Rescorla FJ, Sawin RS, Coran AG, Dillon PW, Azizkhan RG.: *Long-term outcome for infants and children with sacrococcygeal teratoma: a report from the Childrens Cancer Group.* J Pediatr Surg 33(2):171-6, 1998
16. Yoshida M, Matsuoka K, Nakazawa A, et al.: *Sacrococcygeal yolk sac tumor developing after teratoma: A clinicopathological study of pediatric sacrococcygeal germ cell tumors and a proposal of the pathogenesis of sacrococcygeal yolk sac tumors.* J Pediatr Surg 48(4):776-81, 2013

The Outcomes of Treatment for Sacrococcygeal Teratoma : The 24-year Experiences

CS Gong, M.D., SC Kim, M.D., DY Kim, M.D., IK Kim¹, M.D.,
JM Namgung, M.D., JH Hwang, M.D., JJ Kim², M.D.

*Pediatric Surgery, University of Ulsan College of Medicine and
Asan Medical Center, Seoul, Korea
Department of Surgery¹, University of Ulsan College of Medicine
and GangNeung Asan Medical Center, GangNeung, Korea
Department of Pathology², University of Ulsan College of Medicine
and Asan Medical Center, Seoul, Korea*

The purposes of this study was to describe the clinical correlation of mass size and gestational age, prognostic factors in sacrococcygeal teratoma (SCT) at a tertiary pediatric surgery, University of Ulsan College of Medicine and Asan Medical Center (AMC), Seoul, Korea. Fifty five patients admitted to the AMC with a SCT between May 1989 and April 2013 were included in this retrospective review. Mean follow up was 861 days. Mean maternal age at delivery was 30 ± 2.7 year, mean gestational age (GA) was 36.9 ± 3.6 wks, and preterm delivery was 21.8%. Birth body weight was 3182 ± 644 g and male vs. female ratio was 1:2.05. We can't find significant difference between Caesarean section and maternal age at delivery ($p = 0.817$). But, caesarean section was favored by gestational age ($p = 0.002$), larger tumor size ($p = 0.029$) or higher tumor weight fraction rate to birth body weight ($p = 0.024$). Type I was 13, II 21, III 17, and IV 3 according to Altman et al. classification. The tumor component was predominantly cystic(50%) in 73.1%. And the majority histological classification of tumors were mature teratoma (70.3%). The mortality rate was 5.5%. Three patients expired because of postpartum bleeding, post-op bleeding related complication such as DIC. SCT recurred in four patients. The interval between first and second operation was 206.2 ± 111.0 d (range 53~325 d). In two patients, serum AFP levels were elevated at a regular checkup without any symptom, and subsequent imaging studies revealed SCT. The most common cause of death was bleeding and bleeding related complication. So Caesarean section and active peripartum and perioperative management will be needed for huge solid SCT. In the case of Yolk sac tumor or huge immature teratoma, possibility of recurrence have to be always considered, so follow up by serial AFP and MRI is important for SCT management.

(J Kor Assoc Pediatr Surg 19(2):81~89), 2013.

Index Words : *Sacroccocygeal teratoma, Teratoma, Delivery, Preterm*

Correspondence : **Seong-Chul Kim, M.D.**, Division of Pediatric surgery, Asan Medical Center, Asanbyeongwon-gil 86, Sonpa-gu, Seoul 138-736, Korea
Tel : 02)3010-3498, Fax : 02)474-6701
E-mail: sckim@amc.seoul.kr