

항문-직장 기형에 대한 근치 수술 후 배변 조절 능력: Krackenbeck 평가 결과

¹부산대학교 의학전문대학원 외과학교실, ²부산대학교 어린이병원 소아외과, ³부산대학교병원 외과

조용훈^{1,2} · 심문섭³ · 김해영^{1,2}

Function on Defecation after Surgical Correction in Anorectal Malformations: Results of Krackenbeck Assessment

Yonghoon Cho, M.D.^{1,2}, Munsup Sim, M.D.³, Haeyoung Kim, M.D.^{1,2}

Departments of ¹Pediatric Surgery and ²Surgery, Pusan National University Children's Hospital,

³Department of Surgery, Pusan National University Hospital, Postgraduate School of Medicine, Pusan National University, Busan, Korea

Purpose: The final aim of operation for anorectal malformations (ARMs) is acquisition of normal bowel habit by preserving an anorectal function. This study was performed to assess the functional results after definite correction of the malformations.

Methods: 37 patients (Group 1) without rectocutaneous fistula and 23 patients (Group 2) with rectocutaneous fistula were Included in the study. The authors examined functional assessment of children over 3-years-old, according to Krackenbeck classification, and analyzed the results.

Results: Group 1 showed significant soiling in 24.3% and constipation requiring management in 35.1%. But Group 2 showed constipation in only 8.7%. The results of Krackenbeck assessment are as follows: Group 1 showed good results in 64.9% and poor results in 35.1% with improvement over time. Group 2 showed 91.3%, 8.7%, respectively.

Conclusion: Constipation rather than soiling was the main functional problem after surgical repair of anorectal malformations but improved over time. It seems that more aggressive management of constipation warrants good results after definite surgical repair. (J Korean Surg Soc 2010;79:223-227)

Key Words: Anorectal malformations, Defecation, Assessment

중심 단어: 항문-직장 기형, 배변, 평가

서 론

항문-직장 기형은 신생아 2,000명에서 5,000명 중 1명에서 발생하는 것으로 알려져 있는데,⁽¹⁾ 대부분은 출생 후 초기 신생아기에 진단이 되며, 출생 전에 진단되는 경우는 매

우 드물다. 항문-직장 기형의 형태학적 분류에는 2가지 방법이 보편적으로 사용되는데, 한 가지는 고전적으로 널리 사용되어온 Wingspread 분류법⁽²⁾이고 다른 한 가지는 최근에 제시된 분류법으로 누공의 존재 및 위치를 기본으로, 보다 간단하고 단순화시켜 적용하기 쉽게 하였으며 수술에 대한 결과 비교도 좀 더 용이하게 한 Krackenbeck 분류법⁽³⁾이다.

치료의 궁극적 목표는 항문-직장 기능 보존을 통한 정상 배변 조절 능력의 획득에 있다. 이를 위해 여러 가지 근치 수술 방법이 시행되어 왔으나,⁽⁴⁻⁷⁾ Peña⁽⁸⁾가 1982년 후방

책임저자: 김해영, 경남 양산시 물금읍 범어리
☎ 626-770, 양산부산대학교병원 외과
Tel: 055-360-2124, Fax: 055-360-2154
E-mail: haeyoung@pusan.ac.kr

접수일 : 2010년 4월 4일, 게재승인일 : 2010년 6월 21일

시상 정중 절개를 통한 항문-직장 성형술(Peña procedure; posterior sagittal anorectoplasty, PSARP)을 소개한 이후로, 이 방법이 표준 수술로 자리 잡았으며 수술 후 결과에서도 많은 발전과 개선이 있었다. 최근에는 최소 침습의 개념과 항문 괄약근 손상을 최소화하려는 노력이 합쳐지면서 항문 괄약근의 절개가 필요했던 PSARP 대신 복강경으로 시야를 확보하면서 괄약근을 관통하여 항문을 만드는 것과 같은 여러 가지 새로운 수술 방법이 시도되고 있다.(9-11)

이러한 근치 수술은 항문이라는 장기의 구조적 결함을 교정하는 치료이다. 구조적 결함을 교정했다는 것이 배변 조절이라는 항문의 기능까지 정상으로 회복시켰다는 의미는 아니므로, 근치 수술 후 변실금이나 변비 같은 문제가 발생할 수 있는데, 이는 향후 정상적인 배변 조절 기능 획득에 중요한 변수로 작용한다.

이에 저자들은 항문-직장 기형으로 치료받은 환자들을 대상으로 일정 기간이 경과한 후 배변 조절 능력을 평가하고 수술 후 결과에 대해 알아보고자 본 연구를 시행하였다.

방 법

1) 연구 대상

항문-직장 기형으로 치료받은 환자를 대상으로 하였다. 이들 중 배변 조절 능력의 자의성을 확인하기 위해 어느 정도 의사 표현이 가능한 환자를 대상으로 하였는데, 이를 위해 2000년 1월부터 2006년 6월까지 수술 받아 2009년 7월 현재 나이가 만 3세 이상인 환자들로 대상을 제한하였다. 그리고 수술을 시행하는 병원 사이의 오차를 없애기 위해 근치 수술을 부산대학교병원에서 받은 환자로 제한하였으며, 총배설장 기형 및 Down 병, 척추 특히 천골의 기형, 그리고 회음부 골격계의 기형 등과 같이 배변 조절 능력에 중대한 영향을 미칠 수 있는 동반 질환이 있는 환자도 대상에서 제외하였다.

2) 연구 방법

배변 조절 능력의 정도에 대한 평가는 Krickenbeck assessment를 사용하였다(Table 1). 대상환자군은 Krickenbeck 분류에 따라 주요 임상군 중 직장요도루 내지 직장방광루처럼 회음부 피부에서 직장 누공의 개구부를 확인할 수 없었던 군(Group 1)과 피부누공이나 직장질전정부누공처럼 개구부를 확인할 수 있었던 군(Group 2)으로 나누었다. 각 군의 환자가 만 3세가 된 이후부터 정기적으로 배변 조절 능

Table 1. Krickenbeck assessment

1. Voluntary bowel movements (VBM)	Yes/No
Feeling of urge, capacity to verbalize	
Hold the bowel movement	
2. Soiling	
Grade 1 Occasionally (once/twice per week)	Yes/No
Grade 2 Every day, no social problem	
Grade 3 Constant, social problem	
3. Constipation	
Grade 1 Manageable by changes in diet	Yes/No
Grade 2 Requires laxatives	
Grade 3 Resistant to diet and laxatives	

Table 2. Clinical classification of patients: main group according to Krickenbeck classification

	Group 1 (n=37)	Group 2 (n=23)
Perineal fistula	—	21
Vestibular fistula	—	2
Rectourethral fistula		—
Bulbar	20	
Prostatic	12	
Rectovesical fistula	1	—
No fistula	4	—

력의 정도를 평가하여 관찰하였다.

각 군의 환자를 배변 조절 능력의 정도에 따라 결과가 양호한 군(good)과 불량한 군(poor)으로 나누었으며, Krickenbeck 평가에서 수의적인 장 운동(voluntary bowel movement)이 있으면서 soiling과 constipation이 각각 Grade 1인 경우를 양호로 정의하였고, 그 외의 경우를 모두 불량으로 정의하였다.

3) 통계

통계 처리는 Graph Pad Prism Version 5.0 (Graph Pad Software Inc., San Diego, CA, USA)를 바탕으로 P-value가 0.05 이하인 경우 유의성이 있다고 판단하였다.

결 과

대상 기간인 2000년 1월부터 2006년 6월까지 항문-직장 기형으로 수술 받은 총 81명 중 조건에 맞아 대상이 된 60명으로, Group 1이 37명, Group 2가 23명이었다(Table 2).

1) Group 1의 근치 수술 후 평가

36개월 이후 수의적인 장 운동 조절은 70.3%에서 관찰되었다. Grade 2 이상을 불량한 결과로 볼 때, 변실금은 24.3%,

Table 3. Results of Krickenbeck assessment in Group 1 (n=37)

	VBM*	Soiling	Constipation
No (%)	11 (29.7)	12 (32.5)	17 (46.0)
Yes (%)	26 (70.3)		
Grade 1		16 (43.2)	7 (18.9)
Grade 2		6 (16.2)	11 (29.7)
Grade 3		3 (8.1)	2 (5.4)

*VBM = voluntary bowel movements.

Table 4. Results of Krickenbeck assessment in Group 2 (n=23)

	VBM*	Soiling	Constipation
No (%)	—	21 (91.3)	16 (69.6)
Yes (%)	23 (100.0)		
Grade 1		2 (8.7)	5 (21.7)
Grade 2		—	2 (8.7)
Grade 3		—	—

*VBM = voluntary bowel movements.

변비는 35.1%의 발생 빈도를 보였다(Table 3).

2) Group 2의 근치 수술 후 평가

Group 1과는 달리 수의적인 장 운동 조절은 100%로 관찰되었고, Grade 2 이상의 변실금은 보이지 않았지만 Grade 2 이상의 변비는 8.7%에서 관찰되었다(Table 4).

3) 배변 조절 능력

Group 1에서 배변 조절 능력이 양호한 경우는 70.3%, 불량한 경우는 29.7%를 보였고, Group 2에서는 각각 91.3%, 8.7%를 보였다.

고 찰

항문-직장 기형에 대한 교정 수술 후 초기 아동기(early childhood) 동안의 기능적 변화에 있어서 2가지 중요한 점은 잦은 배변 횟수와 변비 발생 여부이다.

항문-직장 기형의 최종 교정 수술 후 잦은 배변 횟수에 의한 회음부 피부의 찰과상은 초기에 흔히 관찰되는 현상 중의 하나로 기본적으로는 조절되지 않는 배변결함을 나타내는 증상이다. 보통의 경우 일정 기간 지속될 수 있지만, 심한 경우에는 상당히 오래 지속되며 이는 불량한 예후 중의 하나로 인지된다. 이러한 현상은 저위형 보다는 중위형 또는 고위형에서 주로 많이 관찰되며, 비 정상적인 결장 운

동 기능을 반영한다고 볼 수 있다.(12,13)

반면, 변비는 고위형 뿐만 아니라 저위형 기형에서도 흔하게 관찰되는데, 일반적으로 좌측 결장 또는 전체 결장의 운동성 저하와 같은 결장 운동 기능 이상과 관련있다고 알려져 있다.(12,14,15) 항문-직장 기형에 있어서 결장 운동성에 대한 보고에서는, 저위형의 경우 주로 직장-S상 결장 부위의 운동저하가 뚜렷하며 중위형 이상에서는 결장 전체의 전반적인 운동저하가 있지만 특히 우측결장의 운동성 저하가 뚜렷하다고 밝히고 있다.(16) 다른 한편으로는 수술 당시 항문직장에 대한 과도한 견인 조작이 직장에 부분적인 감각신경 차단을 초래하고, 배변 과정의 시작 단계인 변의 감을 느끼는데 장애를 유발하여 변비를 일으킨다고 여겨지며, 최근 일부에서는 직장 맹단 부위와 누공의 연결부위가 항문내괄약근의 역할을 방해한다는 병리 생태학적 결과를 보고하기도 하였다.(17-19)

특히, 변비에 대한 처치는 향후 배변 조절 기능에 영향을 미칠 수 있는 중요한 점으로 생각할 수 있다. 본 연구에서 확인 되었듯이 Group 1, 2 모두 36개월 평가에서 배변 활동에서 변실금 보다는 변비가 문제였다. 시간 경과에 따른 배변 활동의 변화 관찰에서도, 양호한 경우와 불량한 경우를 나누는데 변비 발생 여부가 중요한 변수로 영향을 줄 수 있음을 생각해볼 수 있다.

항문-직장 기형에 대한 교정 수술 후 기능적 평가에 대한 점수화(scoring)는 배변 조절 기능에 대한 정량적 평가 방법으로 이용되고 있다. 이 중 흔히 적용되는 방법으로는 Kelly Score(20)와 Rintala Score(21)가 있는데, 전자의 경우는 주로 배변자제 능력에 대한 보편적인 평가 방법으로 가장 흔하게 적용되며, 후자의 경우는 배변자제 능력뿐 아니라 변비를 포함한 배변 기능의 전반적인 임상 평가 방법으로 사용된다.(21-23) 아울러, 2005년 Krickenbeck assessment의 제안은 향후 항문-직장 기형에 대한 기능적 평가에 있어서 그 방법을 일원화하고자 하는 목적으로 적용되었다. 여러 보고자들은, 직장-피부 누공이 없는 중위형 또는 고위형 기형에서 교정 수술 후 배변 조절 능력에 대한 정량적 평가를 해 보면, 완전한 배변 조절 능력을 획득한 경우가 7~36%, 반대로 심각한 배변결함 증상이 남는 경우가 30~56%, 그리고 변비가 발생한 경우가 5~60% 정도라고 보고하고 있다.(14,21,24-27) 본 연구의 경우 Group 1에서는 Grade 2, 3의 심각한 배변결함 증상이 24.3%에서 발생하였고, 변비는 35.1%에서 발생하여 배변결함 증상 보다는 변비가 더 문제가 되었음을 알 수 있었다. Group 2에서도 국외의 경우 배변

췌장 증상이 10~28%에서 발생하고 변비는 42~53%에서 발생한다고 보고하고 있으며, (28-30) 본 연구의 결과에서도 Grade 2, 3의 배변췌장 증상은 없었고 심한 변비만 8.7%에서 발생하여 변비가 주요 문제점이었다.

직장-피부 누공이 없는 중위형 또는 고위형 항문-직장 기형의 교정에 있어 Peña 술식의 우수성은 이미 보고되어 있지만, 최근 괄약근을 보존하기 위해 시도되고 있는 새로운 방법과 Peña 술식에 대한 비교 평가는 아직 이른 상황이다. 본 연구에서도 Peña 수술 후 배변 조절 능력의 결과는 우수한 것으로 확인되었으며, 괄약근 관통 항문-직장 성형술 (sphincter piercing anorectoplasty)이 소수에서 새롭게 시도되었으며 이에 대한 평가는 향후 좀 더 많은 결과를 바탕으로 이루어져야 할 것으로 생각된다.

결 론

항문-직장 기형의 근치 수술 후 배변 조절 능력은 Wingspread 분류법에서처럼 회음부에 직장 누공이 있었던 환자들에서 전반적으로 양호한 결과를 보였다. 하지만 대장 환자 모두가 시간이 흐름에 따라 배변 조절 능력이 향상되는 경향을 보였는데, 변실금보다는 변비가 더 큰 문제였다. 변비에 대해서는 가능하면 조기에 보다 적극적인 대처를 시행함으로써 배변 조절 능력의 향상을 기대할 수 있을 것으로 생각된다.

REFERENCES

- Mundt E, Bates MD. Genetics of Hirschsprung disease and anorectal malformations. *Semin Pediatr Surg* 2010;19:107-17.
- Stephens FD, Smith ED. Classification, identification and assessment of surgical treatment of anorectal anomalies. *Pediatr Surg Int* 1986;1:200-5.
- Holschneider A, Hutson J, Peña A, Beket E, Chatterjee S, Coran A, et al. Preliminary report on the International Conference for the Development of Standards for the Treatment of Anorectal Malformations. *J Pediatr Surg* 2005;40:1521-6.
- Kiesewetter WB. Imperforate anus: the role and results of the sacro-abdominoperineal operation. *Ann Surg* 1966;164:655-61.
- Rehbein F. Imperforate anus: experiences with abdomino-perineal and abdomino-sacro-perineal pull-through procedures. *J Pediatr Surg* 1967;2:99-105.
- Soave F. Surgery of rectal anomalies with presentation of the relationship between the colonic muscular sleeve and the puborectalis muscle. *J Pediatr Surg* 1969;4:705-12.
- Mollard P, Soucy P, Louis D, Meunier P. Preservation of infralevator structures in imperforate anus repair. *J Pediatr Surg* 1989;24:1023-6.
- deVries PA, Peña A. Posterior sagittal anorectoplasty. *J Pediatr Surg* 1982;17:638-43.
- Willital GH. Endosurgical intrapuborectal reconstruction of high anorectal anomalies. *Pediatr Endosurg Innov Tech* 1998;2:5-11.
- Georgeson KE, Inge TH, Albanese CT. Laparoscopically assisted anorectal pull-through for high imperforate anus--a new technique. *J Pediatr Surg* 2000;35:927-31.
- Kubota A, Kawahara H, Okuyama H, Oue T, Tazuke Y, Tanaka N, et al. Laparoscopically assisted anorectoplasty using perineal ultrasonographic guide: a preliminary report. *J Pediatr Surg* 2005;40:1535-8.
- Rintala R, Lindahl H, Louhimo I. Anorectal malformations - results of treatment and long term follow-up in 208 patients. *Pediatr Surg Int* 1991;6:36-41.
- Templeton JM Jr, Ditesheim JA. High imperforate anus--quantitative results of long-term fecal continence. *J Pediatr Surg* 1985;20:645-52.
- Peña A. Anorectal malformations. *Semin Pediatr Surg* 1995;4:35-47.
- Rintala R, Lindahl H, Martinen E, Sariola H. Constipation is a major functional complication after internal sphincter-saving posterior sagittal anorectoplasty for high and intermediate anorectal malformations. *J Pediatr Surg* 1993;28:1054-8.
- Demirogullari B, Ozen IO, Karabulut R, Turkyilmaz Z, Sonmez K, Kale N, et al. Colonic motility and functional assessment of the patients with anorectal malformations according to Krickenbeck consensus. *J Pediatr Surg* 2008;43:1839-43.
- Meier-Ruge WA, Holschneider AM. Histopathologic observations of anorectal abnormalities in anal atresia. *Pediatr Surg Int* 2000;16:2-7.
- Gangopadhyay AN, Upadhyaya VD, Gupta DK, Agarwal DK, Sharma SP, Arya NC. Histology of the terminal end of the distal rectal pouch and fistula region in anorectal malformations. *Asian J Surg* 2008;31:211-5.
- Lambrecht W, Lierse W. The internal sphincter in anorectal malformations: morphologic investigations in neonatal pigs. *J Pediatr Surg* 1987;22:1160-8.
- Kelly JH. The clinical and radiological assessment of anal continence in childhood. *Aust N Z J Surg* 1972;42:62-3.
- Rintala RJ, Lindahl H. Is normal bowel function possible after repair of intermediate and high anorectal malformations? *J Pediatr Surg* 1995;30:491-4.
- Liem NT, Hau BD. Long-term follow-up results of the treatment of high and intermediate anorectal malformations using a modified technique of posterior sagittal anorectoplasty. *Eur J Pediatr Surg* 2001;11:242-5.
- Rintala R, Mildh L, Lindahl H. Fecal continence and quality of life in adult patients with an operated low anorectal malfor-

- mation. *J Pediatr Surg* 1992;27:902-5.
- 24) Langemeijer RA, Molenaar JC. Continence after posterior sagittal anorectoplasty. *J Pediatr Surg* 1991;26:587-90.
- 25) Hassett S, Snell S, Hughes-Thomas A, Holmes K. 10-year outcome of children born with anorectal malformation, treated by posterior sagittal anorectoplasty, assessed according to the Krickbeck classification. *J Pediatr Surg* 2009;44:399-403.
- 26) Chun YS, Kim WK, Park KW, Lee SC, Jung SE. Long-term results of imperforate anus treated by posterior sagittal anorectoplasty. *J Korean Surg Soc* 2000;59:514-8.
- 27) Kim WK. Posterior sagittal anorectoplasty for imperforate anus and anorectal malformations. *J Korean Surg Soc* 1987;32:344-52.
- 28) Rintala RJ, Lindahl HG, Rasanen M. Do children with repaired low anorectal malformations have normal bowel function? *J Pediatr Surg* 1997;32:823-6.
- 29) Labouré S, Besson R, Lamblin MD, Debeugny P. Incontinence and constipation after low anorectal malformations in a boy. *Eur J Pediatr Surg* 2000;10:23-9.
- 30) Javid PJ, Barnhart DC, Hirschl RB, Coran AG, Harmon CM. Immediate and long-term results of surgical management of low imperforate anus in girls. *J Pediatr Surg* 1998;33:198-203.