Clinical Implication of Surgically treated Abdomino-perineal Solid Tumor in the Newborn : A Single-Center Experience

Yong-Hoon Cho, Soo-Hong Kim, Hae-Young Kim, Young-Mi Han*, Na-Rae Lee*, Mi-Hye Bae*, Kyung-Hee Park *, and Shin-Yun Byun*

Division of Pediatric Surgery, Department of Surgery, Pusan National University School of Medicine, Yangsan, Korea
Division of Neonatology*, Department of Pediatrics, Pusan National University School of Medicine, Yangsan, Korea

ABSTRACT

Purpose: Abdominoperineal solid tumors presenting in neonates often require surgical intervention during the neonatal period. Although we report our single-center experience, this study would be meaningful to understand the clinical implications of these neoplasms.

Methods: We retrospectively reviewed and analyzed the clinical data and characteristics of 22 patients (≤ 28 days old) diagnosed with histopathologically confirmed abdominoperineal solid neoplasms (benign or malignant) after surgical resection.

Results: The mean gestational age and postnatal age at the time of operation were 38.3 ± 1.8 weeks and 13.5 ± 8.3 days, respectively. Most patients (18/22, 81.8%) were diagnosed during antenatal care visits; however, 4 (18.2%) were identified after birth. The mean tumor size was 6.4×5.3 cm (3.5–17.0 cm), and tumors occurred most frequently within the sacrococcygeal region (8/22, 36.4%). Histopathologically, 14 patients (63.6%) demonstrated benign tumors and 8 (36.4%) demonstrated malignant tumors. Germ cell tumors and hepatoblastomas were the most commonly observed tumors. Fortunately, all patients showed a localized pattern of tumor involvement without distant metastasis. No recurrence or mortality was observed during the follow-up period (mean 66.4 ± 44.2 months).

Conclusion: Abdominoperineal solid tumors occurring in neonates show variable clinical patterns during the antenatal and postnatal monitoring/screening periods. We conclude that aggressive and multidisciplinary approaches could achieve good clinical results in these patients.

Key Words: Abdominoperineal, Solid tumor, Newborn

서론

신생아기 종양은 전체 소아청소년기 종양의 2% 정도를 차지하며, 정상 출생아 12,500-27,500

Received: 11 September 2017

Revised: 9 December 2017

Accepted: 27 December 2017

Correspondence to: Young-Mi Han
Department of Pediatrics, Pusan
National University School of
Medicine, 20 Geumo-ro, Yangsan
50612, Korea

Tel: +82-55-360-2180

Fax: +82-55-360-2181

E-mail: skybluehym@gmail.com

Copyright(c)

By Korean Society of Neonatology.

All right reserved.

This is an Open-Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>), which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

명당 1명 정도에서 발생하는 것으로 추정된다^{1,2)}. 이들의 약 75%에서 고형 종양의 형태를 보이며 대부분은 양성 종양의 임상 양상을 보이지만, 일부에서는 악성의 임상경과를 보여 주산기 사망률에 영향을 준다^{1,3-5)}. 최근 신생아기 종양이 증가한다는 보고도 있었으나⁶⁾ 실제 발병의 증가라기 보다 산전검사 빈도의 증가와 영상 검사법의 진보로 인한 것일 수 있다. 그러나 사산, 유산 또는 보고되지 않은 증례를 감안한다면 실제 유병률은 더 높겠다.

종양 발생학적 관점에서 성인 종양은 외부환경에 대한 인체의 반응이 큰 원인을 차지하지만, 신생아기 종양은 태생기 종양(embryonic tumor)의 일종으로 신생물인 동시에 조직 형성과정 중에 일어나는 선천적 기형이다^{2,7)}. 따라서 발생 빈도 및 부위, 병리조직학적 특성, 임상 양상 및 치료에 있어 이후에 발생하는 소아 종양과는 다른 양상을 보인다.

본 기관은 소아외과 진료를 요하는 신생아의 분만 및 전원이 비교적 많은 병원으로, 복부 및 회음부의 고형종양이 의심되는 신생아에 대한 검사와 치료가 이루어지고 있다. 이에 후향적 연구로 15년

간 단일기관 신생아집중치료실에서 치료 경험한 신생아기 종양 중 병리조직학적으로 최종 확진 된 복부 및 회음부에 발생한 고형 종양을 대상으로 진단 및 치료 과정, 임상 경과에 대해 분석하고 특징을 살펴보았다. 저자들이 아는 한 신생아의 복부 및 회음부의 전반적인 고형종양에 대한 국내 보고가 부재한 상황으로, 본 연구를 통해 산전 또는 출생 후 복부 및 회음부 종양이 발견되었을 때 고려할 질환과 그 경과에 대한 참고자료가 되어 산과와 신생아의 진료에 도움이 되고자 한다.

대상 및 방법

1. 대상

2002년 1월부터 2016년 12월까지 단일기관 신생아집중치료실에 입원한 신생아 중 수술 후 최종 병리조직검사 결과에서 종양으로 확진 된 환자는 23명이었다. 그 중 발생 부위가 목이었던 1명을 제외하

Table 1. Clinical Characteristics

No	Year	GA (wks)	Birth weight (g)	Sex	Delivery	Apgar score (1/5)	Detected wks at ANC (postnatal sign)*	Age at op. (d)	Location	Pathology	Mass size (cm)	CTx.
1	2002	37 ⁺³	3,600	M	C-sec	-	Yes, but unknown	23	Liver	Infantile hemangioendothelioma	6×5	-
2	2003	41 ⁺¹	3,400	F	C-sec	8/9	Yes, but unknown	8	SC	Mature teratoma	4.4×2.3×1.5	-
3	2004	36 ⁺¹	3,612	M	C-sec	-	20	8	SC	Immature teratoma	10	-
4	2004	39 ⁺⁰	2,800	F	NSVD	-	Yes, but unknown	17	SC	Mature teratoma	9×5.4	-
5	2004	39 ⁺⁶	3,400	F	NSVD	7/9	36	28	RP	Immature teratoma	7×7×5	-
6	2004	39 ⁺⁶	3,940	M	NSVD	-	Yes, but unknown	29	Liver	Epithelial hepatoblastoma, fetal	3.7×2.5	6th
7	2006	41 ⁺⁰	3,850	F	NSVD	7/9	39	9	Lt. adrenal	Neuroblastoma, undifferentiated	5×5×3.5	-
8	2009	40 ⁺³	3,020	F	NSVD	9/10	39	15	Lt. adrenal	Neuroblastoma, differentiated	6×4.3	-
9	2010	38 ⁺⁰	3,230	M	C-sec	7/8	32	14	SC	Mature teratoma	5	-
10	2010	35 ⁺⁴	3,400	M	C-sec	8/9	35	14	RP	Mature teratoma	5.2×4.5	-
11	2011	37 ⁺⁵	3,420	M	C-sec	6/8	(Antenatal ascites)	2	S-colon	Infantile fibrosarcoma	4.7×2.8	-
12	2012	39 ⁺¹	3,220	F	NSVD	8/9	35	10	SC	Mature teratoma	8.6×7.0×3.6	-
13	2012	36 ⁺⁰	3,480	M	C-sec	6/7	24	6	SC	Mature teratoma	17×10.7×4.3	-
14	2012	37 ⁺⁶	3,500	F	C-sec	7/8	34	7	Rt. ovary	Teratoma	6.1×4	-
15	2013	37 ⁺³	4,400	F	C-sec	8/9	(Hemihypertrophy)	19	Liver	Epithelial hepatoblastoma, mixed	7.6×5.5	4th
16	2014	38 ⁺⁴	2,840	M	C-sec	-	(Abd. distention)	29	Rt. adrenal	Mature teratoma	4.5×5	-
17	2014	41 ⁺¹	3,400	F	NSVD	7/8	29	7	Lt. ovary	Teratoma	4	-
18	2016	40 ⁺¹	3,400	F	NSVD	5/7	32	9	Rt. ovary	Teratoma	3.5	-
19	2016	36 ⁺⁴	3,960	M	C-sec	4/6	35	1	RP	Mature teratoma	9.3×1.9×0.3	-
20	2017	40 ⁺⁰	3,330	F	C-sec	8/9	20	7	SC	Mature teratoma	5×3	-
21	2017	38 ⁺⁴	3,140	F	C-sec	-	(Cystic mass)	15	SC	Mature teratoma	3.1×1.8	-
22	2017	38 ⁺⁶	3,610	M	NSVD	8/9	38	20	Liver	Epithelial hepatoblastoma, mixed	3.8	4th

(postnatal sign)* means chief complaints of newborn who was not detected at antenatal clinic.

No.15 patient was diagnosed with Beckwith-Widemann syndrome and No.16 patient had intestinal malrotation without volvulus.

Abbreviations: M, male; F, female; C-sec, cesarean section; NSVD, normal spontaneous vaginal delivery; GA, gestational age; ANC, antenatal clinic; op, operation; CTx, chemotherapy; SC, sacrococcyx; RP, retroperitoneum; S-colon, sigmoid colon.

고 복강 및 회음부에 발생한 고형종양 환자 22명을 대상으로 연구하였다.

2. 방법

대상 환자의 의무 기록을 통해 재태 주수, 출생 시 체중, 성별, 분만 방법, 산전 선별검사 확인 여부 및 진단시기, 수술 당시 연령, 종양의 발생 부위와 크기 및 조직검사결과, 수술 후 보조치료 시행 여부에 대하여 후향적으로 분석하였다.

결과

1. 기초 임상 정보

대상자 22명의 평균 재태 기간은 38.3 ± 1.8 주(35-41주), 평균 출생 체중은 $3,452.4 \pm 368.1$ g, 여아가 12예(54.5%)였고 분만 방식은 제왕절개가 13예(59.1%)였다. 산전 선별검사 중 확인된 경우가 18예(81.8%)이었고 수술 당시 출생 후 연령은 평균 13.5 ± 8.3 일(1-29일)이었다(Tables 1, 2).

2. 임상 특징

종물에 대한 검사 및 치료를 결정하게 된 주 호소로는 산전 선별검사서 발견된 복강 내 덩이가 18예(81.8%)로 대부분이었고 첫 진단된 임신 주수는 20주에서 39주로 다양하였으나 4예에서는 알 수 없었다. 산전 이상을 발견하지 못하고 출생한 경우는 4예로 산전 태아의 복수가 있었던 1예, 출생 후 복부팽만 1예, 생후 17일에 왼쪽 만신비대와 큰 허가 관찰된 1예, 그리고 꼬리뼈 부위에 4 cm의 낭성 덩이가 관찰된 1예였다.

부위는 엉치꼬리가 8예(36.4%)로 가장 많았고, 그 외 간 4예(18.3%), 난소, 부신, 배막뒤공간이 각 3예(13.6%), 구불장독창자 1예(4.5%)로 확인되었다. 종양의 크기는 평균 6.4×5.3 cm (최소 3.5 cm, 최대 17.0 cm)였다. 모든 간모세포종, 신경모세포종, 섬유육종 환자에서는 컴퓨터단층촬영술(computed tomography, CT), 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 및 양전자방출단층촬영

(positron emission tomography-computerized tomography, PET-CT) 검사를 시행하였고, 최종 임상 병기는 모든 경우에서 원격전이 없이 발생부위에 국한되어 있었다(Tables 1, 3).

3. 병리조직학적 결과 및 보조 화학 요법

병리조직검사 결과는 양성 14예(63.6%)와 악성 8예(36.4%)였으며, 배아세포종양이 15예(68.2%)로 가장 많은 빈도를 보였다. 양성 종양은 배아세포종양 13예(92.9%) 및 영아 간 혈관내피종 1예(7.1%)였고, 악성종양은 상피 간모세포종 3예(37.5%), 배아세포종양 및 신경모세포종 각 2예(9.2%), 영아섬유육종 1예(12.5%)였다(Tables 1, 4).

모든 종양에서 완전한 외과적 절제가 시행되었고, 3예의 상피 간모세포종에서 수술 후 보조 화학요법을 시행하였다. 영아섬유육종 1예는 수술 절제부위가 깨끗하였으며 잔존 종양이 없어 보조 항암치료를 시행하지 않았다. 수술 후 평균 추적 기간은 66.4 ± 44.2 개월(최소 7개월-최대 120개월)로 수술 전후 전체 추적 기간 동안 종양 및 수술과 관련되어 발생한 뇌신경학적 결함이나 배변과 배뇨장애는 발생하지 않았고 재발과 사망도 없었다.

고찰

신생아기 종양 자체는 매우 드물며, 이 중 고형종양이 가장 흔한 형태로 전체 신생아 종양의 75% 이상을 차지하지만 정확한 발병 빈

Table 3. Summary of Clinical Characteristics

	n=22
Main sign and symptom, n (%)	
Antenatal mass	18 (81.8)
Abdominal distention	1 (4.5)
Antenatal ascites	1 (4.5)
Hemihypertrophy	1 (4.5)
Cystic mass	1 (4.5)
Anatomical location, n (%)	
Sacroccoccyx	8 (36.4)
Liver	4 (18.3)
Ovary	3 (13.6)
Adrenal gland	3 (13.6)
Retroperitoneum	3 (13.6)
Other (Sigmoid colon)	1 (4.5)
Mass size, mean (cm)	6.4×5.3 (3.5-17.0)
Associated anomaly, n (%)	
Beckwith-Widemann syndrome	1 (4.5)
Malrotation	1 (4.5)
Localized mass, n (%)	22 (100)

Table 2. Demographic Findings

	n=22
Male, n (%)	10 (45.5)
Gestational age (wks)	38.3 ± 1.8 (35-41)
Birth weight (g)	$3,452.4 \pm 368.1$
Cesarean section, n (%)	13 (59.1)
Postnatal age at operation (d)	13.5 ± 8.3 (1-29)
Detection during ANC (%)	18 (81.8)

Values are mean±SD (range).

Abbreviation: ANC, antenatal clinic.

Table 4. Anatomical location and Pathology

Anatomical location	Pathology	
	Benign, n=14 (63.6%)	Malignancy, n=8 (36.4%)
Liver (n=4)	Infantile hepatic hemangioendothelioma (n=1)	Epithelial hepatoblastoma, fetal (n=1) Epithelial hepatoblastoma, mixed (n=2)
Ovary (n=3)	Mature teratoma (n=3)	-
Sacroccocyx (n=8)	Mature teratoma (n=7)	Immature teratoma (n=1)
Adrenal gland (n=3)	Mature teratoma (n=1)	Neuroblastoma, differentiated (n=1) Neuroblastoma, undifferentiated (n=1)
Retroperitoneum (n=3)	Mature teratoma (n=2)	Immature teratoma (n=1)
Sigmoid colon (n=1)	-	Infantile fibrosarcoma (n=1)

도나 경과에 대해서는 잘 알려져 있지 않다^{1,3,5)}. 종양에 따른 산전 선별검사에서의 확인 비율은 정확히 알려지지 않았지만 많은 경우 산전 선별검사서 발견되며, 이는 검사의 빈도 증가 및 장비 개선의 영향이 큰 것으로 보인다. 성별 분포에 있어서 배아세포종양을 제외하고는 남녀 비율이 거의 대등하다고 알려져 있고, 일부 연구에서는 재태 연령 및 저체중 출생과 종양발생의 연관성을 제기하고 있지만 명확한 결론은 없다⁸⁻¹⁰⁾. 본 연구에서는 출생 전 발견 비율이 81.8%였고, 남녀 성비가 1:1.2로 큰 차이가 없었으며 평균 재태 연령은 38.3 ± 1.8 주, 미숙아는 4예(18.2%)로 적었다. 본 연구에서 시간 경과에 따른 뚜렷한 증감은 확인할 수 없었다. 전수 조사가 아닌 한 기관의 자료이며, 해마다 전체 출생에 대한 비율을 본 것이 아니기에 본 자료만으로 증감을 추정할 수 없었다. 다만 산전 검사의 증가 및 장비의 개선 등으로 산전에 발견되는 이상이 많은 만큼 분만으로 이어지지 못하는 경우도 있을 수 있겠다.

신생아기 종양의 발생과 관련된 요인으로 염색체 이상과 같은 유전적 요인과 출생 전-후 방사선 피폭, 모체의 약물 복용, 감염 등이 있으며¹¹⁻¹⁶⁾, 특히 다른 선천성 기형과 연관되어 발생하는 신생아기 종양이 15-20% 정도라고 알려져 있다^{2,17,18)}. 본 연구에서는 2명(9.1%)에서 다른 문제가 동반되어 있었고, 1예는 청색증으로 입원 치료하던 중 생후 17일에 왼쪽 반신비대와 큰 허가 관찰되어 초음파 검사를 하게 되었으며 간 내부에 덩이가 발견되어 전원 된 경우이다. 간모세포종이 진단되었으며 유전자검사까지 시행하여 H19 hypermethylation paternal uniparental disomy가 확인되었고 Beckwith-Widemann syndrome으로 최종 진단되었다. 다른 1예는 반복된 복부 팽만이 있어 시행한 복부초음파에서 오른쪽 부신의 종양이 확인된 경우로, 최종 기형종이 진단되었으며 수술 중 장 회전이상이 발견되었으나 종양 발생과의 연관성은 명백하지 않았다. 전원되었던 15 중 6명에 대해서는 의무기록지를 통해서 Apgar score를 확인할 수 없었고 상세한 산모의 병력을 확인하는 것에 제한이 있었다.

산전 이상을 발견하지 못하고 출생한 경우 중 산전 태아의 복수가 있었던 1예는 출생 당일 개복 수술하여 구불장루창자에 발생한 종양

과 장 천공이 진단된 경우로 산전 초음파에서 종양은 보이지 않았고 장 천공으로 인한 복수만 확인된 것이었다. 1예는 지속적인 복부 팽만으로 생후 16일째에 타 병원에서 초음파 시행 후 종양이 의심되어 전원이 되었으며 초음파와 자기공명영상검사로 오른쪽 부신의 종양을 확인하고 수술 후 조직검사로 기형종을 진단하였다. 이 환자의 경우 반복된 복부 팽만은 종양 자체보다 동반된 장 회전 이상이 원인으로 생각되었다. 앞서 기술한 생후 17일에 왼쪽 반신비대와 큰 허가 인지되어 복부초음파를 시행하여 진단에 이르렀던 환자는 반복적이고 주의 깊은 신체검사로 질병을 의심하는 것이 필요하다는 경각심을 주는 경우로, 산전 진단이 나날이 개선된다라도 출생 후 신생아를 돌보는 의사의 세심한 진찰은 필수적이라 하겠다.

병리조직검사 결과 양성 및 악성의 빈도가 각각 63.6%, 36.4%로 확인되었고 양성은 배아세포종양, 악성은 간모세포종이 가장 많았는데 기존의 보고들에 의하면 대표적인 신생아기 고형종양은 배아세포종양과 신경모세포종으로 알려져 있다^{1,3,5)}.

영치꼬리 기형종은 가장 흔한 신생아기 종양으로 생존 출생아 40,000명 중 1명에서 발생하며 남녀 성비가 1:4로 여아에서 우세하다고 알려져 있다¹⁹⁾. 산전 초음파에서 관찰되는 경우 고형 또는 고형과 낭성의 혼재가 대부분이며 온전히 낭성인 경우는 드물다²⁰⁾. 본 연구에서도 7예가 영치꼬리 기형종으로 전체 종양 중 가장 많은 빈도를 보였고 5명이 여자로 알려진 바와 같이 여아에서 많았다.

간에 발생하는 종물은 신생아기 종물의 약 5%에서 관찰되는데, 혈관내피종, 중간엽 과오종, 간모세포종, 간세포샘종 등 다양한 양성과 악성 종물이 발생할 수 있다¹⁹⁾. 문헌에서는 혈관 관련 종양에 대해 혈관종, 영아 혈관종, 간의 동정맥 기형, 그리고 영아 혈관내피종 등 다양하게 기술하고 있는데²¹⁾, 혈관종이 간에 발생하는 가장 흔한 양성종양이지만 생후 2년 이내에 합병증 없이 자연 소실되는 빈도가 높아 실제 발병율은 낮게 보고되는 것으로 알려져 있다^{22,23)}. 그러나 간 내 혈관종 과열로 인해 울혈성 심부전, 혈소판 감소증, 복강 내 출혈 등이 합병되는 경우에는 이로 인한 사망률이 12-90%로 다양하게 보고 되고 있어 조직학적으로 양성이라도 경과관찰 시 주의가 필요하다²⁴⁾. 간모세포종은 간에 발생하는 가장 흔한 악성 종양이

지만 태아기부터 신생아기에는 혈관종이나 중간엽 과소종보다 적다고 하였다¹⁹⁾. 본 연구에서는 악성 2예 모두 간모세포종으로 차이가 있었으나 한 기관에서 적은 환자수를 대상으로 한 연구이기에 비교에 제한이 있다.

신경모세포종은 신생아에서 가장 흔한 악성종양으로 전체 악성 종양의 20%를 차지한다²⁵⁾. 태아기 및 신생아기에 발견되는 신경모세포종은 90% 이상에서 부신에 발생하며, 이후 소아 시기의 경우 단지 35%에서 부신 발생인 것과 큰 차이가 있다^{26,27)}. 산전에 진단되는 경우 주로 임신 3분기에 진단되며 전형적으로 오른쪽 신장 위라고 알려져 있다²⁸⁾. 본 연구에서 2예는 임신 39주에 왼쪽 부신으로 발견되었고, 1예는 29주에 오른쪽 부신에 위치한 것이 확인되었다. 큰 소아나 성인의 경우와 달리 조직검사 상 악성이더라도 전반적인 예후는 아주 양호한 특성이 있는데, 이는 1세 미만의 영아에서 발생한 경우 자연회복이 가능하기 때문이다²⁹⁾. 이러한 이유로 본원에서 치료한 환자들도 보조항암치료 없이 추적 중이다.

전반적인 경과를 신생아기 이후의 소아 종양과는 다른 차이를 보이며, 일부에서는 신생아기 종양이 급속히 진행되어 훨씬 더 나쁜 예후를 보인다고 하였다³⁰⁻³²⁾. 고형 종양의 해부학적 위치나 크기에 따라 수술적 처치를 시행해야 하는 경우 큰 소아나 성인에 비해 수술 전후 신체 대사 항상성유지에 어려움이 발생할 수 있어 주의를 요한다. 본 연구의 모든 예에서 수술 전-후 원격전이는 발견되지 않은 국소 질환으로 확인되었는데, 이는 신생아기 종양의 특성 상 병리조직학적으로 악성 소견을 보이더라도 임상 양상이 항상 일치하지 않는 특성을 반영한다고 할 수 있다. 그리고 신생아기 종양 적출 수술 후 보조항암치료를 시행한 3예도 추적 기간 중 재발이나 사망은 없었다. 신생아기 종양 자체의 드문 빈도를 감안할 때 본 연구의 결과로 신생아 종양은 다른 시기 소아종양에 비해 더 나쁜 예후를 보이지 않는 것으로 생각되나 향후 더 많은 증례에 대한 경과 관찰이 필요하겠

다. 신생아기에 발견되는 복부 및 회음부 고형종양의 경우 임상적으로 4가지 측면을 주의하여 치료해 나가야 한다. 첫째, 출생 전후기 측면에서 종양 자체가 태아에 영향을 미칠 수 있다는 것과 양성-악성에 대한 감별이 어렵다는 것으로, 이에 대한 치료는 출생 전-후 발현되는 증상과 연관이 많다. 따라서 처치에 있어 가능한 경우 외과적 완전 절제를 바탕으로 여러 전문분야적 접근이 이루어져야 하며, 신생아집중치료실에 입원 중 발현될 수 있는 연관 징후와 증상 확인 및 향후 처치에 있어 신생아 의료진의 역할이 매우 중요하겠

둘째, 분만 방식과 분만 후 신생아의 치료에 대한 고려가 필요하다. 즉 크기가 매우 큰 종양의 경우 자연질식분만 진행이 어려울 수 있으므로 안전한 분만 방식에 대한 선택이 필수적이며, 분만 후 즉각적인 치료가 필요할 것으로 예견되는 경우에는 산모를 전문적인 신생아 집중치료가 가능한 의료기관으로 이송하여 분만하도록 해야 한다.

셋째, 신생아 악성 종양에 대한 수술 후 보조화학요법에 대한 측면이

다. 신생아기는 아직 신장 및 간 기능의 미성숙하며, 항암제로 인한 세포독성과 약동학적 자료가 부족한 실정으로 투여 용량 조절 및 약물 농도 감시에 대한 어려움이 있어 주의를 요한다³³⁾. 마지막으로 신생아 보호자에 대한 심리적 지지도 함께 이루어져야 한다. 신생아기에 종양을 진단받고 수술 및 약물치료가 시행되어야 하는 상황에 대한 보호자의 심리적 고통에 대해 이해하고 뒷받침하는 것은 원활한 치료종결뿐만 아니라 퇴원 후 가정에서 관리 및 추적에도 큰 영향을 준다. 이 점에서도 여러 관련 전문분야의 협력 진료에 도움이 되겠다.

본 연구는 국한된 지역에서 수집된 표본으로 인해 정확한 발생빈도를 예측하기 힘들다는 것과 후향적 연구로 산모와 산전 진단에 대한 정보가 부족하다는 제한이 있다. 그러나 신생아기 종양 자체가 드문 점을 고려해 볼 때, 어느 정도 유의한 자료를 제시할 수 있다고 생각된다.

결론적으로, 신생아기 복부-회음부 고형종양은 산전관리 확인부터 출생 후 진단까지 다양한 소견을 보일 수 있으며, 양성종양은 배아세포종양 악성종양은 간모세포종이 많았다. 최종 진단 질환에 따라 적합한 치료와 경과가 다르겠지만 산전-후에 여러 전문분야의 협력 진료를 적극적으로 한다면 수술 후 경과에 있어 비교적 좋은 예후를 기대할 수 있으리라 생각된다.

REFERENCES

- 1) Moore SW, Satgé D, Sasco AJ, Zimmermann A, Plaschkes J. The epidemiology of neonatal tumours. Report of an international working group. *Pediatr Surg Int* 2003;19:509-19.
- 2) Halperin EC. Neonatal neoplasms. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 2000;47:171-8.
- 3) Orbach D, Sarnacki S, Brisse HJ, Gauthier-Villars M, Jarreau PH, Tsatsaris V, et al. Neonatal cancer. *Lancet Oncol* 2013;14:e609-20.
- 4) Vormoor J, Chintagumpala M. Leukaemia & cancer in neonates. *Semin Fetal Neonatal Med* 2012;17:183-4.
- 5) Lee TC, Olutoye OO. Evaluation of the prenatally diagnosed mass. *Semin Fetal Neonatal Med* 2012;17:185-91.
- 6) Parkes SE, Muir KR, Southern L, Cameron AH, Darbyshire PJ, Stevens MC. Neonatal tumours: a thirty-year population-based study. *Med Pediatr Oncol* 1994;22:309-17.
- 7) Willis RA. The embryonic tumours and teratomas. In: Willis RA. *The borderland of embryology and pathology*. 2nd ed. London: Butterworths, 1962:422-66.
- 8) Spector LG, Puumala SE, Carozza SE, Chow EJ, Fox EE, Horel S, et al. Cancer risk among children with very low birth weights. *Pediatrics* 2009;124:96-104.

- 9) Desandes E, Guissou S, Ducassou S, Lacour B. Neonatal solid tumors: incidence and survival in France. *Pediatr Blood Cancer* 2016;63:1375-80.
- 10) Gurney JG, Severson RK, Davis S, Robison LL. Incidence of cancer in children in the United States: sex-race-and 1-year age-specific rates by histological type. *Cancer* 1995;75:2186-95.
- 11) Lichtenstein P, Holm NV, Verkasalo PK, Iliadou A, Kaprio J, Koskenvuo M, et al. Environmental and heritable factors in the causation of cancer--analyses of cohorts of twins from Sweden, Denmark and Finland. *N Engl J Med* 2000;343:78-85.
- 12) Doll R, Wakeford R. Risk of childhood cancer from fetal irradiation. *Br J Radiol* 1997;70:130-9.
- 13) Potter EL. A historical view: diethylstilbestrol use during pregnancy: a 30-year historical perspective. *Pediatr Pathol* 1991;11:781-9.
- 14) Bruisma F, Venn A, Lancaster P, Speirs A, Healy D. Incidence of cancer in children born after in-vitro fertilization. *Hum Reprod* 2000;15:604-7.
- 15) Buckley JD. The aetiology of cancer in the very young. *Br J Cancer Suppl* 1992;18:S8-12.
- 16) Schüz J, Kaatsch P, Kaletsch U, Meinert R, Michaelis J. Association of childhood cancer with factors related to pregnancy and birth. *Int J Epidemiol* 1999;28:631-9.
- 17) Altmann AE, Halliday JL, Giles GG. Associations between congenital malformations and childhood cancer: a register-based case-control study. *Br J Cancer* 1998;78:1244-9.
- 18) Moore SW. Neonatal tumours. *Pediatr Surg Int* 2013;29:1217-29.
- 19) Isaacs H, Jr. Tumors of the fetus and newborn. *Major Probl Pathol* 1997;38:224-97.
- 20) Tongsong T, Wanapirak C, Piyamongkol W, Sudasana J. Prenatal sonographic features of sacrococcygeal teratoma. *Int J Gynaecol Obstet* 1999;67:95-101.
- 21) Woodward PJ, Sohaey R, Kennedy A, Koeller KK. From the archives of the AFIP: a comprehensive review of fetal tumors with pathologic correlation. *Radiographics* 2005;25:215-42.
- 22) Dreyfus M, Baldauf JJ, Dadoun K, Becmeur F, Berrut F, Ritter J. Prenatal diagnosis of hepatic hemangioma. *Fetal Diagn Ther* 1996;11:57-60.
- 23) Chuileannain FN, Rowlands S, Sampson A. Ultrasonographic appearances of fetal hepatic hemangioma. *J Ultrasound Med* 1999;18:379-81.
- 24) Fishman SJ, Mulliken JB. Hemangiomas and vascular malformations of infancy and childhood. *Pediatr Clin North Am* 1993;40:1177-200.
- 25) Bader JL, Miller RW. US cancer incidence and mortality in the first year of life. *Am J Dis Child* 1979;133:157-9.
- 26) Acharya S, Jayabose S, Kogan SJ, Tugal O, Beneck D, Leslie D, et al. Prenatally diagnosed neuroblastoma. *Cancer* 1997;80:304-10.
- 27) Lonergan GJ, Schwab CM, Suarez ES, Carlson CL. Neuroblastoma, ganglioneuroblastoma, and ganglioneuroma: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 2002;22:911-34.
- 28) Houlihan C, Jampolsky M, Shilad A, Principe D. Prenatal diagnosis of neuroblastoma with sonography and magnetic resonance imaging. *Ultrasound Med* 2004;23:547-50.
- 29) Granata C, Fagnani AM, Gambini C, Boglino C, Bagnulo S, Cecchetto G, et al. Features and outcome of neuroblastoma detected before birth. *J Pediatr Surg* 2000;35:88-91.
- 30) Batcup G. Cancer in the very young child--pitfalls and problems for the pathologist. *Br J Cancer Suppl* 1992;18:S5-7.
- 31) Moore SW, Kaschula ROC, Albertyn R, Rode H, Millar AJW, Karabus C. The outcome of solid tumours occurring in the neonatal period. *Pediatr Surg Int* 1995;10:366-70.
- 32) Rao S, Azmy A, Carachi R. Neonatal tumours: a single-centre experience. *Pediatr Surg Int* 2002;18:306-9.
- 33) Kearns GL, Abdel-Rahman SM, Alander SW, Blowey DL, Leeder JS, Kauffman RE. Developmental pharmacology--drug disposition, action, and therapy in infants and children. *N Engl J Med* 2003;349:1157-67.