

아래눈꺼풀 눈물점에 발생한 각화 낭종 A Lacrimal Punctal Keratinizing Cyst of the Lower Lid

강태신 · 이연희 · 이성복

Tae-Seen Kang, MD, Yeon-Hee Lee, MD, PhD, Sung Bok Lee, MD, PhD

충남대학교 의과대학 안과학교실

Department of Ophthalmology, Chungnam National University College of Medicine, Daejeon, Korea

Purpose: We report an unusual case of a keratinizing cyst on the lacrimal punctum.

Case summary: A 49-year-old female presented with an outpouching punctal mass at the left lower lid that occurred a week prior to her visit. Histopathological examination revealed a cyst filled with keratin arranged in lamina and surrounding the bacterial colony. The epithelial wall was composed of multilaminar, keratinizing squamous epithelium without goblet cells. The features were consistent with a keratinizing cyst. There was no recurrence at 4 months after the excision, and the punctum was patent.

Conclusions: Keratinizing cyst should be considered as a differential diagnosis of the cystic mass of the punctum. Because it has an excellent prognosis after surgical resection, complete resection should be performed if a keratinizing cyst is suspected.

J Korean Ophthalmol Soc 2019;60(7):692-695

Keywords: Keratinizing cyst, Lacrimal punctum

눈물점주위종양은 드문 질환으로 전체 성형안과 분야 수술환자 중 약 0.27%를 차지한다.¹ 이 부위의 종양은 눈물소관, 결막, 피부와 피부 부속기에서 유래하며, 조직학적 특징에 의해 분류할 수 있다. 환자는 종양 자체의 문제 이외에도, 눈물점폐쇄에 의한 눈물흘림, 안구 불편감을 호소할 수 있다. 이 중 각화 낭종(keratinizing cyst)은 매우 드문 질환으로 세계적으로 약 3예 정도의 보고가 있다.^{1,4} 저자들이 알기로는 국내에서 아직 보고된 바가 없는 눈물점의 각화 낭종을 경험하였기에 보고하고자 한다.

증례보고

49세 여자 환자가 1주 전에 발생한 좌안 아래눈꺼풀 눈물점의 용기성 종괴를 주소로 내원하였다. 과거력에서 20년 전에 전신홍반성루프스를 진단받았다. 4년 전 hydroxy-chloroquine sulfate에 의한 망막 합병증으로 우안 시력 저하가 발생했고, 중심장액맥락막병증에 대해 광역학 치료와 hydroxychloroquine sulfate를 중단한 후 안정적으로 유지되었다. 그 밖에 다른 전신질환의 병력 및 외상력은 없었다. 환자는 2개월 전에도 같은 부위에 비슷한 병변이 생겼다가 하루 만에 저절로 호전되었다고 했다. 통증, 눈물 흘림, 발적, 출혈, 시력 저하와 같은 다른 증상은 보이지 않았다. 최대교정시력은 우안 0.08, 좌안 0.8이었으며, 안압은 우안 11 mmHg, 좌안 12 mmHg였다. 병변은 직경 2 mm가량 솟아있었으며, 표면은 흰색을 띠고 있고 팽팽하고 매끈하며 무혈관성이었다. 종괴는 결막 위로 돌출되어 있었으며, 눈물점 입구는 찾을 수 없었다(Fig. 1A). 전신에 다른 피부 병변은 없었고, 이외 안과적 검진상 기타 이상 소견은 관찰되

■ Received: 2018. 11. 8. ■ Revised: 2018. 11. 20.

■ Accepted: 2019. 6. 20.

■ Address reprint requests to **Sung Bok Lee, MD, PhD**
Department of Ophthalmology, Chungnam National University Hospital, #282 Munhwa-ro, Jung-gu, Daejeon 35015, Korea
Tel: 82-42-280-7604, Fax: 82-42-255-3745
E-mail: sblee@cnu.ac.kr

* Conflicts of Interest: The authors have no conflicts to disclose.

© 2019 The Korean Ophthalmological Society

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

지 않았다.

눈물점주위종양에 의한 눈물점폐쇄를 진단하고 부분 마취로 수술을 시행하였다. 낭종벽을 박리하던 중 낭종벽 일부가 터져 종괴 내부의 내용물을 먼저 제거한 후 남은 낭종벽을 박리하여 제거했다. 내용물은 단단한 진주색의 달걀 모양으로 보였다. 수술 후 더듬자를 삽입하여 눈물소관을 확인하였고, 눈물소관관류술에서 생리식염수가 통과하는 것을 확인했다. 조직검사에서 중층편평상피로 이루어진 낭종벽(Fig. 1B)과 세균 집락과 이를 둘러싸고 있는 여러 층의 케라틴 섬유 다발로 이루어진 내용물을 확인했다(Fig. 1C). 낭종벽에서 피지샘이 보이지 않았기 때문에 각화 낭종으로 진단하였다. 수술 4개월 후 눈물점은 좁아진 상태지만 개통되어 있었고, 종괴는 재발하지 않았고 눈물흘림 증상도 없었다(Fig. 1D).

고 찰

눈물점주위종양은 결막, 눈물소관, 눈꺼풀에서 발생할 수 있으며, 기원에 따라 크게 상피성과 비상피성으로 구분할 수 있다.¹ 가장 흔한 종양은 모반이고, 이외에 기저세포암, 편평세포 유두종, 화농육아종 등이 발생할 수 있다.⁵ 이러한 조직학적 진단은 대부분 수술 전 임상 소견으로 구분할 수 있기 때문에¹ 자세한 병력청취가 필요하다.

눈물점의 각화 낭종은 눈물소관이 확장되는 질환으로 내부에는 하얗게 보이는 케라틴이 있으며, 그 위를 반투명한 조직이 감싸고 있다. 둥근 천장 모양의 종괴가 눈물점 부위에 있으며, 보통 눈물점 입구는 보이지 않는다.^{2,4} 빛간섭단층촬영에서는 수직눈물소관분절의 낭성 확장과 내부의 고반사도의 음영으로 보이는 케라틴이 보인다.³ 치료는 수술적 절제로 충분하며, 재발은 보고되지 않았다.^{2,4}

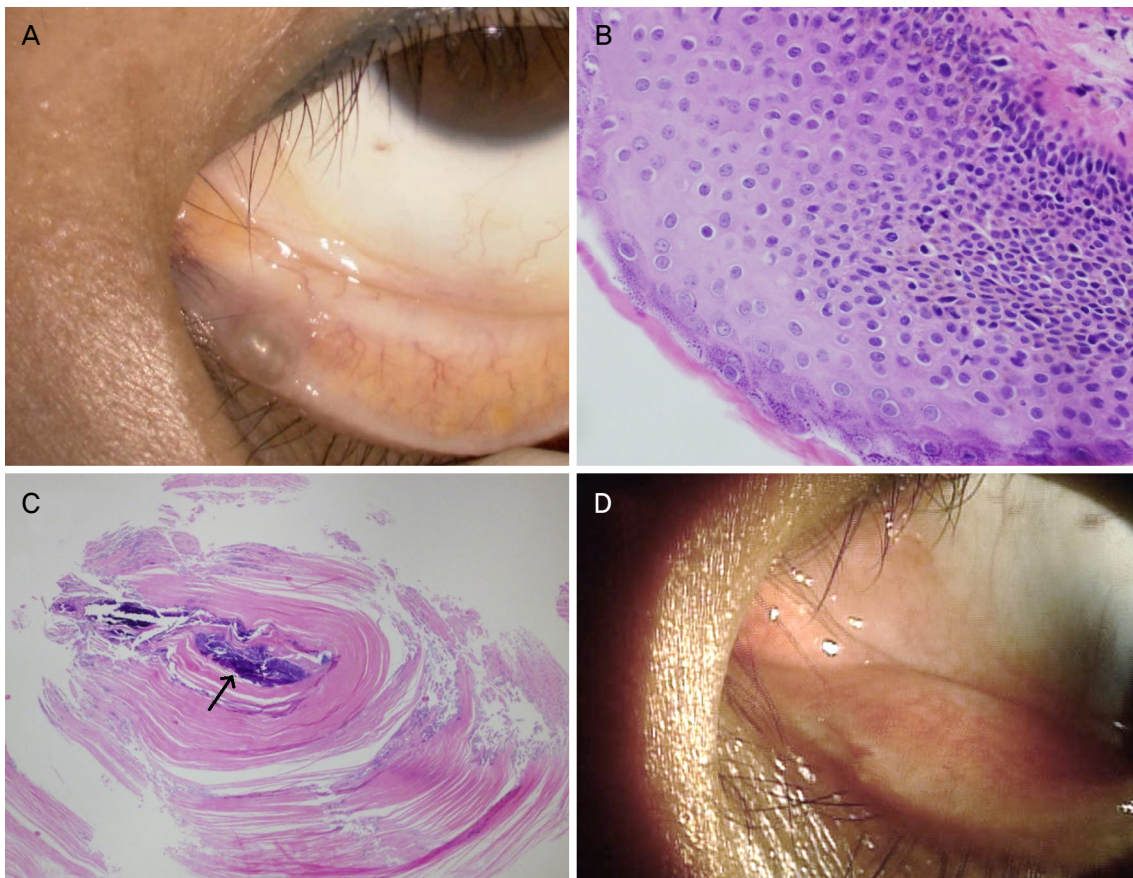


Figure 1. The keratinizing cyst of the left lower lid. (A) A photograph of the left lower eyelid showing a 2 mm, tense, whitish, non-vascular, smooth, cystic, dome-shaped mass at the region of lower punctum. (B) The epithelium was multilayered and showed a regular basaloid germinal layer without any goblet cells or any granular layer. Microphotograph showed keratin fibers on the stratified squamous epithelium (Haematoxylin and Eosin [H&E] stain, $\times 400$). (C) Microphotograph of the cystic content showing central bacterial colony (arrow) and surrounding keratin fibers arranged in laminar and wavy patterns (H&E stain, $\times 40$). (D) There was no recurrence after 4 months.

Yonekawa et al⁴은 눈물점의 각화 낭종이 수직눈물소관 분절이 확장되어 발생한다고 했다. 근거로 이 종양과 눈물 소관의 조직학적 소견이 유사함을 들었다. 보고된 이들 증례에서는 중층편평상피가 낭종 안쪽을 감싸고 있었고, 규칙적인 바닥양세포가 있었으며, 술잔세포와 소포는 보이지 않았다. 본 증례에서도 같은 소견을 확인할 수 있었다. 본 증례에서는 기존의 보고와 몇 가지 차이점이 있다. 우선 본 증례에서는 케라틴 중심부에 헤마톡실린 양성인 세균 집락이 있었다. 이러한 점은 세균 집락이 케라틴의 분비 및 응집을 유도하여 각화 낭종을 유발했다고 추측할 수 있다. 또한 케라틴 층이 기존의 보고들보다 더 규칙적인 모양으로 중심원을 보여주고 있었는데, 이 역시 중심부의 세균 집락이 케라틴 분비를 유도했다는 근거로 여겨진다. 본 증례에서 세균 집락이 각화 낭종을 형성한 정확한 기전은 알 수 없으나 균 집락이 상피세포층을 자극하여, 중층편평상피세포가 함입되면서 케라틴을 분비했다고 추정된다.

본 증례에서 발견된 균은 헤마톡실린에 염색되어 진한 남색으로 보였다. 그러나 이미 파라핀 블록으로 제작한 후에 균 집락을 발견했기 때문에, 그람 염색을 할 수 없어 균을 동정할 수 없었다. 균 집락을 형성한 균을 확인할 수는 없었으나, 피부상재균으로 헤마톡실린에 염색되어 남색으로 보이고,⁶ 상피낭종의 내용물을 배양했을 때 가장 흔히 발견된다는 점에서,⁷ coagulase negative *Staphylococci*를 가장 가능성 높은 균주로 생각해 볼 수 있다.

각화 낭종의 감별진단으로는 유피낭종(dermoid cyst)이 있다. 유피낭종은 낭종의 벽을 중층편평상피가 싸고 있다는 점과 내용물이 케라틴으로 구성되어 있다는 점이 비슷하나, 낭종의 벽에 피지샘이 확인된다는 점이 다르다. 또한 상피봉입낭종(epidermal inclusion cyst)도 감별해야 하는데, 상피봉입낭종은 각화 낭종과 임상양상은 비슷하나,¹ 조직

검사에서 낭종의 벽에서 술잔세포가 보인다는 차이가 있다. 술잔세포와 피지샘세포는 내부에 각각 뮤신과 지질이 있는 공포(vacuole)가 있기 때문에, 면역조직화학염색으로 각각 Alcian blue stain, Oil-red-O stain을 해볼 수 있다. 그러나 본 증례에서는 헤마톡실린-에오신 염색에서 이러한 공포가 관찰되지 않았기 때문에 추가적인 염색은 시행하지 않았다.

결론적으로 눈물점의 낭성종양 중에 드물게 각화 낭종이 발생할 수 있으므로 감별진단으로 고려하여야 한다. 또한 이 질환은 수술적 절제 후 양호한 자연 경과를 가지고 있으므로 임상적으로 의심되는 경우 완전 절제를 시도하여야 할 것이다.

REFERENCES

- 1) Rumelt S, Pe'er J, Rubin PA. The clinicopathological spectrum of benign peripunctal tumours. *Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol* 2005;243:113-9.
- 2) Ali MJ, Naik MN, Kaliki S. Punctal keratinizing cyst: a clinicopathological correlation of an exceptionally rare lacrimal disorder. *Ophthalmic Plast Reconstr Surg* 2015;31:e66-8.
- 3) Kamal S, Ali MJ, Naik MN. Punctal keratinizing cyst: report in a pediatric patient with fourier domain optical coherence tomography features. *Ophthalmic Plast Reconstr Surg* 2015;31:161-3.
- 4) Yonekawa Y, Jakobiec FA, Zakka FR, Kim N. Keratinizing cyst of the lacrimal punctum. *Cornea* 2013;32:883-5.
- 5) Suh JY, Jung HM, Ahn HB, Kim MH. Clinical features and treatment of peripunctal tumors. *J Korean Ophthalmol Soc* 2012;53:918-23.
- 6) Wang L, Bi C, Wang T, et al. A coagulase-negative and non-haemolytic strain of *Staphylococcus aureus* for investigating the roles of SrtA in a murine model of bloodstream infection. *Pathog Dis* 2015;73:ftv042.
- 7) Kuniyuki S, Yoshida Y, Maekawa N, Yamanaka K. Bacteriological study of epidermal cysts. *Acta Derm Venereol* 2008;88:23-5.

= 국문초록 =

아래눈꺼풀 눈물점에 발생한 각화 낭종

목적: 눈물점에 발생한 각화 낭종을 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 49세 여자 환자가 1주 전에 발생한 좌측 아래 눈물점의 용기성 종괴를 주소로 내원하였다. 조직학적으로 낭종 안에 세균 집락과 이를 둘러싸고 있는 여러 층의 케라틴을 확인했다. 중층편평상피로 이루어진 낭종벽에서는 술잔세포가 보이지 않았고, 이는 각화 낭종에 부합하였다. 수술적 절제 4개월 후 재발은 없었으며, 눈물점은 개통되어 있었다.

결론: 눈물점에 발생한 낭종의 감별진단으로는 각화 낭종을 고려해야 할 것이다. 또한 수술적 절제 후 좋은 예후를 보여주기 때문에 임상적으로 의심되는 경우에는 완전한 절제를 고려해야 할 것이다.

〈대한안과학회지 2019;60(7):692-695〉

강태신 / Tae-Seen Kang
충남대학교 의과대학 안과학교실
Department of Ophthalmology, Chungnam
National University College of Medicine

