

## 코결막염이 동반된 특발안와염의 임상양상

### Clinical Characteristics of Idiopathic Orbital Inflammation Accompanied with Paranasal Sinusitis

이가현<sup>1,2</sup> · 윤진숙<sup>1</sup>

Ka Hyun Lee, MD<sup>1,2</sup>, Jin Sook Yoon, MD, PhD<sup>1</sup>

연세대학교 의과대학 안과학교실 시기능개발연구소<sup>1</sup>, 건양대학교 의과대학 안과학교실<sup>2</sup>

*The Institute of Vision Research, Department of Ophthalmology, Yonsei University College of Medicine<sup>1</sup>, Seoul, Korea  
Department of Ophthalmology, Konyang University College of Medicine<sup>2</sup>, Daejeon, Korea*

**Purpose:** To investigate the clinical characteristics of idiopathic orbital inflammatory disease (IOI) with paranasal sinusitis.

**Methods:** This study is a retrospective, comparative case series of patients who were diagnosed with IOI between January 2009 and December 2016. This study included patients with available medical and radiologic data at diagnosis and who participated in follow-up for more than 12 months after treatment. The patients were divided into two groups according to accompaniment of paranasal sinusitis and were compared.

**Results:** Among 101 patients with IOI, 13 (12.9%) were identified to have paranasal sinusitis. The incidence of pain was higher in patients with sinusitis (69.2%) than in patients without sinusitis (25.0%,  $p = 0.003$ ). More patients with paranasal sinusitis experienced recurrence after systemic steroid therapy (69.2%) than in the other group (34.1%,  $p = 0.033$ ). Additional immunosuppressants and/or radiation therapy were needed only in 9.1% patients without sinusitis but in 38.5% patients with sinusitis ( $p = 0.039$ ).

**Conclusions:** IOI patients with sinusitis showed a significantly higher recurrence rate. More careful follow-up of patients during steroid tapering and treatment of sinusitis might be helpful to prevent recurrence of IOI.

J Korean Ophthalmol Soc 2017;58(7):776-781

**Keywords:** Idiopathic orbital inflammation, Sinusitis

특발안와염(idiopathic orbital inflammation, IOI)은 다양한 임상양상과 조직병리학적 특징을 보이는 양성, 비감염성 질환으로, B림프구와 T림프구를 비롯한 여러 염증세포와 관련된 염증반응으로 인하여 발생한다.<sup>1-3</sup> IOI와 면역글로불린G4

관련질환(immunoglobulin G4-related disorder, IgG4-RD)과의 연관성은 여러 선행 연구에서 밝혀진 바 있으며,<sup>4,5</sup> 특히 Lee et al<sup>6</sup>은 IgG4-RD와 관련되어 흔히 동반되는 안와아래 신경(infraorbital nerve, ION)의 확장이 IOI의 임상양상, 영상의학적 특징 및 경과와 예후에 연관이 있는 인자임을 보고한 바 있다. 이들의 논문에서 ION의 확장이 동반되었던 IOI 환자의 91.7%에서 염증의 위치가 안와 아래쪽이었는데, 이들 중 75%에서 위턱골 등 코결막의 염증이 동반되었다고 보고하였다.

IOI에 코결막염이 동반된 경우에 대한 논문은 많지 않으나, 몇몇 연구들에서 IOI에 코결막염이 동반되는 경우가 있

■ Received: 2017. 4. 20.      ■ Revised: 2017. 6. 3.

■ Accepted: 2017. 6. 25.

■ Address reprint requests to **Jin Sook Yoon, MD, PhD**  
Department of Ophthalmology, Severance Hospital, # 50-1  
Yonsei-ro, Seodaemun-gu, Seoul 03722, Korea  
Tel: 82-2-2228-3570, Fax: 82-2-312-0541  
E-mail: yoonjs@yuhs.ac

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

© 2017 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.

음이 밝혀진 바 있다.<sup>7-10</sup> 이 중 Li et al<sup>10</sup>은 46명의 눈물샘염 형태의 IOI 환자 중 16명(34.8%)에서 코결막염이 동반되었으며, 특히 면역글로불린 G4 양성인 환자에서 코결막염이 동반된 경우가 더 많았다고 보고하였다. 그러나 아직까지 코결막염을 동반한 IOI의 임상양상과 치료 경과 등을 밝힌 논문이 없었다. 이에 저자들은 IOI에서 위턱굴 등 코결막염증이 동반된 경우의 임상양상과 치료경과를 IOI에서 코결막염이 동반되지 않은 경우와 비교하였다.

## 대상과 방법

2009년부터 2016년 12월까지 세브란스병원 및 건양대학교병원 안과에서 IOI로 진단받은 환자들의 의무기록을 후향적으로 분석하였다. 안구돌출, 통증 및 눈꺼풀 부종과 발적 등의 임상양상을 띠는 환자 중 감염의 증거가 없고, 갑상선 안병증이나 유육종증, 베게너 육아종증 등 국소적 혹은 전신적인 다른 원인을 제외할 수 있는 경우 IOI로 진단하였다.<sup>1</sup> 모든 환자에서 안와 전산화단층촬영(orbital computed tomography [CT])을 통하여 염종의 위치와 분포 및 코결막염의 유무를 확인하였으며, 코결막염의 유무에 따라 두 군으로 나누어 두 군 간의 임상양상과 치료 경과를 비교하였다. 본 연구는 연구윤리 심의위원회의 승인을 받았으며, 헬싱키 선언을 준수하여 진행하였다.

모든 환자에서 일차적으로 경구 스테로이드 치료(1 mg/kg)를 시행하였으며, 반복적인 스테로이드 치료에도 불구하고 재발하거나 림프증식성 질환이 의심되는 경우 조직검사를 하였다. 조직검사상 림프구형질세포적 침윤, 회오리모양의 석회화나 폐색성 정맥염 등 IgG4-RD에서의 특징적인 조직학적 소견이 발견될 경우 이에 대한 면역형광염색을 시행하였으며, 광범위한 면역글로불린 G4 양성의 염종 세포가 발견될 경우 IgG4-RD로 진단하였다.<sup>11</sup> 통계분석은 SPSS software, V.19.0 (IBM Corp., Armonk, NY, USA)를 사용하였으며,  $p$ 값의 유의 수준은 0.05 미만으로 하였다.

## 결 과

총 101명(남자 51명, 여자 50명)의 IOI 환자들이 연구에 포함되었으며, 평균 경과관찰 기간은 27.1개월이었다. 13명(12.9%)의 환자들 안와 전산화단층촬영에서 코결막염이 관찰되었는데, 위턱굴염이 6명, 별집굴염이 2명이었으며, 5명에서는 위턱굴염과 별집굴염이 모두 관찰되었다. 환자의 평균 연령은 45.9세(10-80세)였으며, 코결막염이 있는 경우는 48.3세(19-71세), 없는 경우는 45.5세(10-80세)였다. 두 군에서 성별, 나이, 증상 이환 기간과 양측성 질환의 빈도

는 차이를 보이지 않았다(Table 1).

IOI 환자들이 가장 많이 호소한 증상은 눈꺼풀 부종(60.4%)과 안구돌출(30.7%)로 양군 간의 빈도 차이는 보이지 않았다. 그러나 초진 시 통증은 코결막염이 동반된 환자들에서 코결막염이 없는 경우보다 유의하게 더 많았다(각각 69.2%와 25.0%,  $p=0.003$ ). 기타 증상은 양군 간에 차이가 없었다(Table 2).

IOI의 위치를 눈물샘염, 근육염, 눈물샘염과 근육염이 함께 나타난 경우 및 안구 뒤쪽에 널리 퍼진 침윤을 보이는 경우로 분류하여 분석하였다. 눈물샘염은 41.6%, 근육염은 36.6%였으며, 눈물샘염과 근육염이 함께 나타난 경우는 7.9%로, 두 군 간의 차이를 보이지 않았다(각각  $p=0.250$ , 0.872, 0.106). 안구 뒤쪽에 널리 퍼진 양상의 염종은 13.9%에서 나타났는데, 코결막염이 있는 경우(23.1%)에서 없는 경우(5.7%)보다 더 많았으나 통계학적 차이는 없었다( $p=0.548$ ).

28.7%의 환자에서 조직검사를 시행하였으며, 경화성 병변은 코결막염을 동반한 경우 14.3%, 동반하지 않은 경우 36.4%로, 통계학적 차이를 보이지 않았다( $p=0.271$ ). IgG4-RD를 진단받은 경우는 코결막염 동반 시 30.8%로 그렇지 않은 경우(13.6%)보다 더 많았으나 통계학적 유의성은 없었다( $p=0.114$ ).

모든 환자들에게 우선적으로 경구 스테로이드 복용(1 mg/kg)을 시행하였으며, 모든 환자에서 증상 및 소견의 호전을 보였다. 62명(61.4%)은 재발 없이 유지되었으나 39명(38.6%)은 1회 이상 재발하였다. 재발률은 코결막염이 동반된 경우 69.2%, 코결막염이 동반되지 않은 경우 34.1%로, 코결막염이 동반된 경우에 통계적으로 유의미하게 더 높았다( $p=0.033$ ). 스테로이드 치료에 반응하지 않거나 치료에도 불구하고 반복적으로 재발하여 추가적인 면역억제제나 방사선 치료가 필요했던 경우도 코결막염이 동반된 환자에서 38.5%, 동반되지 않은 환자에서 9.1%로, 코결막염이 동반된 경우 더 많았다( $p=0.039$ , Fig. 1).

## 고 찰

본 연구는 코결막염이 동반된 IOI의 임상양상, 치료 경과와 예후를 그렇지 않은 경우와 비교한 첫 번째 연구이다. 환자의 부종, 안구돌출, 시력저하 등의 발생 빈도는 두 경우가 유사하였으나, 통증을 호소하는 환자의 빈도가 코결막염이 동반된 경우 더 많았다. 또한 코결막염이 동반된 IOI 환자에서 일차적으로 시행된 전신 스테로이드 치료에도 불구하고 재발한 경우가 유의하게 더 많으며, 반복적인 재발로 인해 면역억제제를 추가하거나 방사선 치료 등이

**Table 1.** Clinical manifestations in patients with idiopathic orbital inflammation

|   | Patients with sinusitis<br>(13 patients) | Patients without sinusitis<br>(88 patients) | p-value            |
|---|--|---|--------------------|
| Sex (male:female)                             | 9:4                                      | 42:46                                       | 0.250              |
| Age (years, mean)                             | 48.3                                     | 45.5  | 0.587              |
| Symptom duration (months, mean)               | 5.1                                      | 7.1   | 0.575              |
| Total follow up (months, mean)                | 22.0                                     | 27.9  | 0.665              |
| Unilateral:Bilateral                          | 10:3                                     | 71:15                                       | 0.916              |
| Initial symptom (n, %)                        |  |   |                    |
| Eyelid swelling                               | 10 (76.9)                                | 51 (58.0)                                   | 0.317              |
| Proptosis                                     | 6 (46.2)                                 | 25 (28.4)                                   | 0.331              |
| Pain  | 9 (69.2)                                 | 22 (25.0)                                   | 0.003 <sup>†</sup> |
| Palpable mass                                 | 1 (7.7)                                  | 13 (14.8)                                   | 0.795              |
| Diplopia                                      | 3 (23.1)                                 | 5 (5.7)                                     | 0.732              |
| Decreased vision                              | 1 (7.7)                                  | 18 (23.4)                                   | 0.701              |
| Location (n, %)                               |  |   |                    |
| Lacrimal gland                                | 3 (23.1)                                 | 39 (44.3)                                   | 0.250              |
| Intraocular muscle                            | 4 (30.8)                                 | 33 (37.5)                                   | 0.872              |
| Lacrimal gland + intraocular muscle           | 3 (23.1)                                 | 5 (12.5)                                    | 0.106              |
| Diffuse infiltration of retrobulbar fat       | 3 (23.1)                                 | 11 (5.7)                                    | 0.548              |
| Sclerosing disease (pathology)                | 1/7                                      | 8/22  | 0.271              |
| IgG4-related disease (n, %)                   | 4 (30.8)                                 | 12 (13.6)                                   | 0.114              |
| Treatment (n, %)                              |  |   |                    |
| Only systemic steroid                         | 8 (61.5)                                 | 80 (90.9)                                   | 0.039 <sup>†</sup> |
| + Additional immunosuppressants*              | 1 (7.7)                                  | 2 (2.3)                                     |                    |
| + Radiation                                   | 2 (15.4)                                 | 3 (3.4)                                     |                    |
| + Additional immunosuppressants and radiation | 2 (15.4)                                 | 3 (3.4)                                     |                    |
| Outcome (n, %)                                |  |   |                    |
| Recurrence ≥1                                 | 9 (69.2)                                 | 30 (34.1)                                   | 0.033 <sup>†</sup> |

Values are presented as n (%) unless otherwise indicated.

IgG4 = immunoglobulin G4.

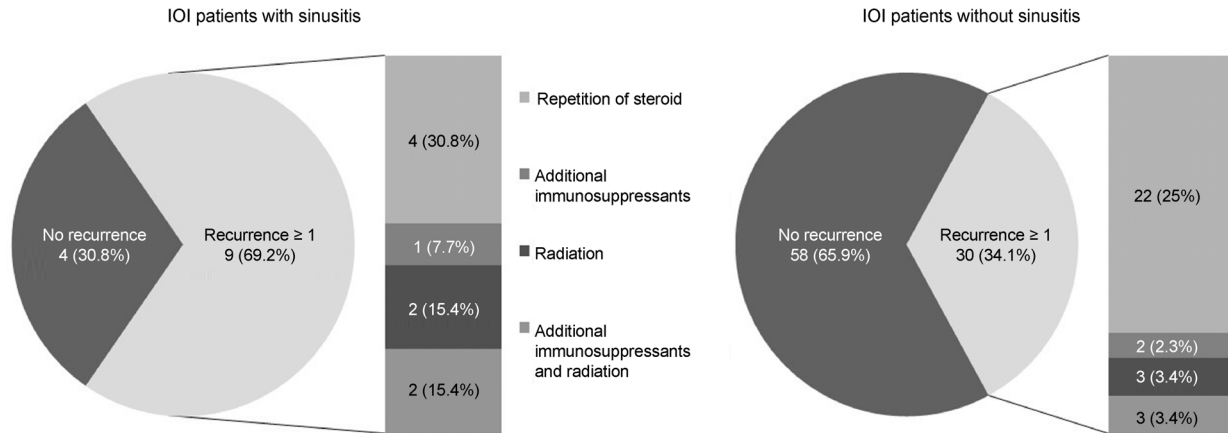
\*Per oral methotrexate, azathioprine, and cyclosporine in addition to systemic steroid; <sup>†</sup>Significant p-values. p-values < 0.05 are considered to be statistically significant.

**Table 2.** Clinical manifestations at the initial visit in idiopathic orbital inflammation patients with sinusitis

| Case | Sex/Age   | Ocular signs and symptoms                                | Symptom duration<br>(months) | Radiologic finding        |           | IgG4-RD | Follow up<br>(months) |
|------|-----------|--|------------------------------|---------------------------|-----------|---------|-----------------------|
|      |           |  |                              | Location of inflammation  | Sinusitis |         |                       |
| 1    | Male/54   | Eyelid swelling and pain (OU)                            | 4                            | Diffuse                   | M + E     | O       | 40                    |
| 2*   | Female/35 | Eyelid swelling, pain and proptosis (OD)                 | 1                            | Myositis                  | M + E     | O       | 12                    |
| 3    | Male/48   | Eyelid swelling, proptosis, pain and blurred vision (OS) | 3                            | Diffuse                   | M         | X       | 35                    |
| 4    | Male/71   | Proptosis and pain (OD)                                  | 12                           | Dacryoadenitis + Myositis | M         | X       | 96                    |
| 5    | Female/59 | Eyelid swelling (OS), and diplopia                       | 1                            | Dacryoadenitis + Myositis | M         | X       | 60                    |
| 6    | Male/40   | Pain (OD)  | 0.50                         | Myositis                  | M         | X       | 40                    |
| 7    | Male/60   | Eyelid swelling, proptosis (OS) and diplopia             | 36                           | Dacryoadenitis + Myositis | M         | O       | 27                    |
| 8    | Female/41 | Eyelid swelling, proptosis, pain (OS) and diplopia       | 0.75                         | Diffuse                   | E         | X       | 12                    |
| 9    | Female/19 | Eyelid swelling, pain and palpable mass (OD)             | 0.25                         | Dacryoadenitis            | E         | X       | 12                    |
| 10   | Female/41 | Pain (OS)  | 0.50                         | Myositis                  | M         | X       | 20                    |
| 11   | Male/50   | Eyelid swelling, and pain (OU)                           | 0.25                         | Myositis                  | M + E     | X       | 72                    |
| 12   | Male/51   | Eyelid swelling and proptosis (OU)                       | 3                            | Dacryoadenitis            | M + E     | X       | 12                    |
| 13   | Male/45   | Eyelid swelling (OD)                                     | 0.25                         | Dacryoadenitis            | M + E     | X       | 11                    |

OU = oculus unitas; OD = oculus dexter; OS = oculus sinister; M = maxillary sinusitis; E = ethmoid sinusitis; IgG4-RD = immunoglobulin G4-related disorder.

\*Illustrations for radiological and histochemical analysis of Case 2 are provided in Figure 1.



**Figure 1.** Treatment and outcome for patients with orbital inflammatory disease. More patients with paranasal sinusitis experienced recurrence after systemic steroid therapy (69.2%) than in the other group (34.1%,  $p = 0.033$ ). Additional immunosuppressants and/or radiation therapy were needed only in 9.1% patients without sinusitis but in 38.5% patients with sinusitis ( $p = 0.039$ ). IOI = idiopathic orbital inflammation.

필요했던 경우도 더 많았다.

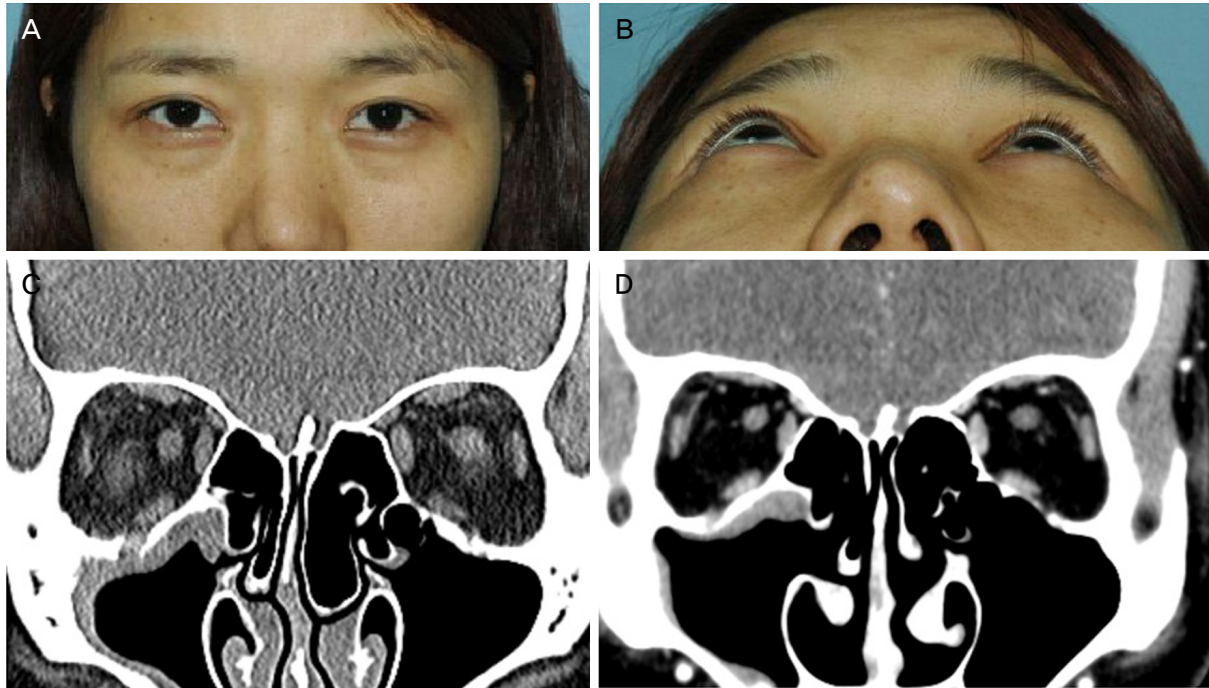
IOI는 안와에서 세 번째로 흔하게 발생하는 질환으로, 양성이며 비감염성인 염증을 특징으로 한다. 이전의 연구에서 밝혀진 IOI의 흔한 증상으로는 안구돌출, 통증, 눈꺼풀 부종 등을 들 수 있으며,<sup>1,2</sup> 이전에 한국에서 발표된 논문들에서도 비슷한 양상을 보였다.<sup>12,13</sup> 본 연구에서도 눈꺼풀 부종, 안구돌출 등은 IOI의 가장 흔한 증상이었으며, 이들의 빈도는 코결막염의 동반 여부와 무관하였다(각각  $p=0.317$ 과  $p=0.331$ ). 그러나 통증을 호소한 경우는 IOI에 코결막염이 동반된 경우에 더 많았는데(각각 69.2%와 25.0%,  $p\text{-value}=0.003$ ), 이는 코결막염에 의한 통증이 반영된 것으로 볼 수 있다.

앞선 연구들에서 IOI에 코결막염이 동반되는 빈도는 17.2-34.8%로<sup>8-10</sup> 본 연구와 그 발생 빈도는 유사하였으며, 이는 일반에서의 코결막염 유병률인 4.5-12%를 상회하였다.<sup>14</sup> IgG4-RD에서 코결막염이 동반된 경우도 종종 보고된 바 있다. Piao et al<sup>15</sup>은 만성 코결막염 환자에서 IgG4-RD가 동반된 경우의 코점막 조직병리 소견을 IgG4-RD가 동반되지 않은 경우와 비교하였는데, IgG4-RD인 만성 코결막염 환자에서 코점막의 림프구, 형질세포, 호산구의 빈도가 더 높았으며, 더 높은 면역글로불린 G4 양성인 형질세포의 침윤을 확인하였다. 또한 Li et al<sup>10</sup>은 46명의 IOI 환자를 대상으로 코결막염의 유무를 영상의학적으로 확인한 연구에서, 면역글로불린 G4 양성인 IOI에서 코결막염이 동반될 가능성이 더 높다고 보고한 바 있다. 이는 우리의 연구에서 IgG4-RD로 확진된 케이스가 코결막염이 동반된 경우에 그렇지 않은 경우보다 더 많았으나 통계적 유의성은 없었던 것과 상반되는데(각각 30.8%와 13.6%,  $p=0.114$ ), 환자의 수가 작았기 때문으로 생각된다.

IOI의 전통적인 치료는 전신적 스테로이드 요법이다. 이의 반응률은 80-90%이지만, 대략 절반 정도의 환자가 염증의 재발을 경험한다.<sup>1,3</sup> Lee et al<sup>6</sup>은 IOI에서 ION 확장이 동반되었을 때 전신 스테로이드 치료에 의존성을 보이거나, 스테로이드를 줄였을 때 재발한 경우가 많았다고 밝혔는데, ION 확장이 동반된 많은 환자에서 코결막염이 있었음을 보고하였다. Leibovitch et al<sup>7</sup>은 IOI에서 코결막염이 동반되었던 여섯 경우에 대하여 보고하였는데, 그중 네 케이스에서 코결막염에 대한 수술적 치료를 시행하였으며, 조직검사상 만성 염증성 반응을 확인하였다. 그러나 아직까지 IOI에서 코결막염이 동반된 경우의 임상양상 및 치료 결과를 그렇지 않은 경우와 비교한 연구는 없었다.

우리의 연구에서 38.6%의 환자가 염증의 재발 소견을 보였으며, 이는 이전의 연구들과 흡사하다. 그러나 코결막염이 동반된 환자에서 코결막염이 동반되지 않은 경우에 비하여 재발이 더 많았다(각각 69.2%와 34.2%,  $p=0.033$ ). 코결막염이 동반된 환자의 안구 뒤쪽에 광범위한 염증 침윤 소견을 보이는 경우가 더 많았는데, 이는 McNicholas et al<sup>16</sup>에 의해 IOI의 나쁜 예후 인자로 제시된 바 있다. 비록 통계학적으로 의미는 없었으나(각각 23.1%와 5.7%,  $p=0.548$ ), 더 많은 수의 환자를 대상으로 한 추가 연구가 필요할 것이다.

Case 2는 내과적 치료에도 반응하지 않는 IOI에서 코결막염이 동반된 경우 이에 대한 수술적 치료가 도움이 될 수 있음을 시사한다(Fig. 2). 면역글로불린 G4 양성으로 IgG4-RD로 진단되었던 경우로, 전신적 스테로이드치료와 면역억제제 사용에도 불구하고 염증 및 통증이 지속되었던 이 환자는 안와 CT에서 발견되었던 위턱굴 염증에 대하여 본원 이비인후과에서 위턱굴에 대한 내시경적 수술을 시행하였으며, 이후 부종, 안구운동 시 통증 등의 증상이 호전



**Figure 2.** Facial photograph and orbital computed tomography (CT) in a patient who visited our clinic with a 1-month history of pain and proptosis in the right eye, and diplopia (case 2). (A, B) Facial photograph at initial visit shows proptosis in the right eye. (C) Initial CT results revealed infiltration of the right inferior orbital area with ipsilateral maxillary sinusitis. She experienced repetitive inflammation despite of systemic steroid therapy and additional immunosuppressants. (D) The follow-up CT taken after functional endoscopic sinus surgery for maxillary sinusitis. She stopped systemic steroid and additional immunosuppressant, and maintained without recurrence.

되어 현재 전신적 스테로이드 치료 및 면역억제제 사용을 중단한 후 경과관찰 중이다. 일반적인 코결막염에서도 내과적인 치료에도 반응이 없으면 수술을 시행하는데,<sup>17</sup> 이는 수술이 코결막 안의 전염증성 세포와 조직들을 제거하며,<sup>18</sup> 농축된 염증을 제거하여 점액섬모성(mucociliary) 염증물질 제거를 촉진하기 때문이다.<sup>19</sup> 유육종증(sarcoidosis), 베게너 육아종증 등의 전신적 염증 질환에서 병발하는 코결막염에서도 유사한 기전으로 수술적 치료가 흔히 이용된다. IOI에 동반된 코결막염의 수술 결과에 대한 선행 논문은 아직 없지만, 위에 적은 기전은 IOI에 동반된 코결막염에 대한 수술 시 IOI가 호전될 가능성을 시사한다. 코결막염에 대한 수술이 일종의 감량 수술(debulking surgery)로서 작용할 가능성도 있다. Mombaerts et al<sup>20</sup>은 스테로이드치료에 저항 혹은 의존성을 보이는 46안의 IOI에서 수술적 치료를 시행하였으며 이들 중 8%에서만 재발하였다. IOI에서 감량 수술이 효과를 보이는 이유에 대해서는 다음과 같은 가설들이 제기되고 있다. 첫째, 수술에 의해 발생한 염증반응에 의해 분비된 전염증성 사이토카인이 미세혈관의 투과성을 증가시켜 염증 회복이 촉진되는데,<sup>21</sup> 이러한 과정이 IOI의 염증을 빠르게 감소시키는 데 영향을 주었을 수 있다. 둘째, 수술이 염증성 조직의 부피를 감소시킴으로써 그 자체로

조직이 회복되는 것을 도왔을 수 있다.

모든 환자들에게 조직검사를 시행하지 않았으며, 이로 인하여 경화성 질환(sclerosing disease)이 치료 경과에 미친 영향을 파악하기 어려웠다는 점은 본 연구의 한계점이다. 본 연구에서는 오직 28.7%의 환자에서만 조직검사가 시행되었다. 그러나 전신적 스테로이드 치료에 대한 즉각적 반응 자체가 IOI의 질병특이적인 증후로 여겨지기도 하며, 임상적으로는 IOI 환자에게 우선적으로 전신적 스테로이드 치료를 시행하되, 이에 반응이 없거나 반복적으로 재발하는 경우에서만 종양 등을 의심하여 조직검사를 시행하는 경우가 보편적이다.<sup>22</sup> 본 연구에서도 동일한 관례에 의하여 치료를 시행하였기 때문에 모든 환자에서 조직검사가 시행되지 않았으며, 이는 추후에 전향적인 대규모 연구를 통하여 보강되어야 할 것이다.

결론적으로, IOI 환자에서 코결막염이 동반된 경우에는 통증을 호소하는 빈도가 그렇지 않은 경우에 비하여 더 잦으며, 스테로이드 치료 후 재발하는 빈도가 더 높았다. 그러므로, IOI에서 코결막염이 동반된 경우에는 더욱 세심한 치료가 필요하며, 필요시 코결막염에 대한 수술적 치료를 고려해야 할 것이다.

## REFERENCES

- 1) Yuen SJ, Rubin PA. Idiopathic orbital inflammation: distribution, clinical features, and treatment outcome. *Arch ophthalmol* 2003; 121:491-9.
- 2) Mombaerts I, Goldschmeding R, Schlingemann RO, Koornneef L. What is orbital pseudotumor? *Surv Ophthalmol* 1996;41:66-78.
- 3) Rubin PA, Foster CS. Etiology and management of idiopathic orbital inflammation. *Am J Ophthalmol* 2004;138:1041-3.
- 4) Takano K, Yajima R, Seki N, et al. A study of infraorbital nerve swelling associated with immunoglobulin G4 Mikulicz's disease. *Mod Rheumatol* 2014;24:798-801.
- 5) Hardy TG, McNab AA, Rose GE. Enlargement of the infraorbital nerve: an important sign associated with orbital reactive lymphoid hyperplasia or immunoglobulin g4-related disease. *Ophthalmology* 2014;121:1297-303.
- 6) Lee KH, Han SH, Yoon JS. Implications of enlarged infraorbital nerve in idiopathic orbital inflammatory disease. *Br J Ophthalmol* 2016;100:1295-300.
- 7) Leibovitch I, Goldberg RA, Selva D. Paranasal sinus inflammation and non-specific orbital inflammatory syndrome: an uncommon association. *Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol* 2006;244:1391-7.
- 8) Eshaghian J, Anderson RL. Sinus involvement in inflammatory orbital pseudotumor. *Arch Ophthalmol* 1981;99:627-30.
- 9) Yan J, Wu Z, Li Y. 36 case idiopathic orbital inflammatory pseudotumor with sinus involvement. *Lin Chuang Er Bi Yan Hou Ke Za Zhi* 2002;16:410-1.
- 10) Li J, Ge X, Ma JM. Relationship between dacryoadenitis subtype of idiopathic orbital inflammatory pseudotumor and paranasal sinusitis. *Int J Ophthalmol* 2016;9:444-7.
- 11) Deshpande V, Zen Y, Chan JK, et al. Consensus statement on the pathology of IgG4-related disease. *Mod Pathol* 2012;25:1181-92.
- 12) Sung MS, Oh HJ, Ko BY, Yoon KC. Clinical features and results of steroid therapy for orbital inflammatory pseudotumor. *J Korean Ophthalmol Soc* 2013;54:185-91.
- 13) Park SJ, Sin SJ, Lee DG, Jang JW. Pseudotumor : distribution, clinical features, treatment outcomes. *J Korean Ophthalmol Soc* 2008; 49:1379-86
- 14) DeConde AS, Soler ZM. Chronic rhinosinusitis: Epidemiology and burden of disease. *Am J Rhinol Allergy* 2016;30:134-9.
- 15) Piao Y, Wang C, Yu W, et al. Concomitant occurrence of Mikulicz's disease and immunoglobulin G4-related chronic rhinosinusitis: a clinicopathological study of 12 cases. *Histopathology* 2016;68: 502-12.
- 16) McNicholas MM, Power WJ, Griffin JF. Idiopathic inflammatory pseudotumour of the orbit: CT features correlated with clinical outcome. *Clin Radiol* 1991;44:3-7.
- 17) Smith TL, Kern R, Palmer JN, et al. Medical therapy vs surgery for chronic rhinosinusitis: a prospective, multi-institutional study with 1-year follow-up. *Int Forum Allergy Rhinol* 2013;3:4-9.
- 18) Bassiouni A, Naidoo Y, Wormald PJ. When FESS fails: the inflammatory load hypothesis in refractory chronic rhinosinusitis. *Laryngoscope* 2012;122:460-6.
- 19) Bassiouni A, Naidoo Y, Wormald PJ. Does mucosal remodeling in chronic rhinosinusitis result in irreversible mucosal disease? *Laryngoscope* 2012;122:225-9.
- 20) Mombaerts I, Cameron JD, Chanlalit W, Garrity JA. Surgical debulking for idiopathic dacryoadenitis: a diagnosis and a cure. *Ophthalmology* 2014;121:603-9.
- 21) Menger MD, Vollmar B. Surgical trauma: hyperinflammation versus immunosuppression? *Langenbecks Arch Surg* 2004;389:475-84.
- 22) Dagi Glass LR, Freitag SK. Orbital inflammation: Corticosteroids first. *Surv Ophthalmol* 2016;61:670-3.

## = 국문초록 =

## 코결막염이 동반된 특발안와염의 임상양상

**목적:** 특발안와염(idiopathic orbital inflammation, IOI)에서 코결막염이 동반된 경우의 임상양상을 밝힌다.

**대상과 방법:** 2009년 1월부터 2016년 12월까지 IOI로 진단받은 환자들의 기록을 후향적으로 비교하여 분석하였다. 이 연구는 영상검사를 비롯한 의무기록이 존재하며, 12개월 이상 경과 관찰한 환자를 대상으로 하였다. 환자들은 코결막염의 유무에 따라 두 그룹으로 나뉘어 분석되었다.

**결과:** 101명의 IOI 환자 중 13명(12.9%)에서 코결막염이 확인되었다. 증상 중 통증을 호소하는 환자가 코결막염이 동반된 경우(69.2%) 그렇지 않은 환자에서보다 더 많았다(25.0%,  $p=0.003$ ). 재발은 코결막염이 동반된 경우 69.2%, 코결막염이 동반되지 않은 경우 34.1%로, 코결막염이 동반된 경우에 더 많았다( $p=0.033$ ). 추가적인 면역억제제나 방사선 치료가 필요했던 경우도 코결막염이 동반되지 않은 환자에서 9.1%, 동반된 환자에서 38.5%로, 코결막염이 동반된 경우 더 많았다( $p=0.039$ ).

**결론:** IOI 환자에서 코결막염이 동반된 경우 스테로이드 치료 후 재발하는 빈도가 더 높았다. IOI에서 코결막염이 동반된 경우에는 더욱 세심한 치료가 필요하며, 코결막염에 대한 적절한 치료가 도움이 될 수 있다.

(대한안과학회지 2017;58(7):776-781)