

= 증례보고 =

난치성 괴사성 공막 천공 환자에서 자가 귀구슬 연골막을 이용한 안구재건술 1예

구 현¹ · 정재훈² · 전연숙¹ · 김재찬¹

중앙대학교 의과대학 안과학교실¹, 서울대학교 의과대학 안과학교실²

목적: 기존 수술적 치료에 반응하지 않는 괴사성 공막염 환자에서 시행한 자가 귀구슬 연골막 이식술 1예를 보고하고자 한다.

증례요약: 75세 여자 환자가 5년 전 좌안의 군날개 제거술을 시행 받은 후 발생한 괴사성 공막염으로 타 병원에서 공막 이식술, 심낭막 이식술 및 양막 이식술을 시행 받았으나 이식편이 녹고 상피화가 이루어지지 않아 의뢰되었다. 내원 시 좌안의 교정시력은 0.06이었고 비측 부위에서 전에 이식된 심낭막이 녹아 맥락막 조직이 노출된 것이 관찰되었다. 저자들은 기존의 심낭막 이식편을 제거한 뒤, 환자의 우측 귀에서 채취한 귀구슬 연골막을 이용하여 공막 결손 부위를 재건하였다. 술 후 1주 내에 자가 귀구슬 연골막 이식편은 혈관 생성 및 빠른 재상피화를 보이며 생착하였으며 3개월 내 결막화가 이루어졌고, 술 후 1년 후까지 합병증 없이 잘 유지되었다.

결론: 난치성 괴사성 공막염 환자에서 자가 귀구슬 연골막 이식술은 혈관 생성 및 빠른 재상피화를 통해 효과적으로 괴사된 공막 조직을 대신하여 안구표면을 재형성 할 수 있었다. 따라서 난치성 공막 결손 시 자가 귀구슬 연골막 시술은 매우 유용하게 사용될 수 있는 새로운 치료법이 될 수 있을 것이다.

<대한안과학회지 2011;52(10):1227-1231>

수술 후 발생하는 괴사성 공막염은 군날개 제거술, 백내장 제거술, 섬유주 절제술 및 망막박리 수술 후 발생한다. 치료는 비스테로이드성 항염증제, 고용량 전신 스테로이드, 면역억제제가 이용되나 괴사된 공막이나 각막에 대해서는 괴사된 조직의 절제 및 구조적 재건이 필요하다.¹ 괴사된 공막의 재건으로 동종공막이식술, 자가축두근막이식술, 자가결막이식술, 골막이식술 및 부분층 진피이식술 등이 이용되어 왔다.²⁻⁷ 하지만 이러한 수술적 방법들은 동종 이식에 따른 거부반응이나 반대측 혹은 동측의 결막에서 조직을 얻어야 하는 부담이 있으며 이식 후 상피화가 이루어지지 않는 경우가 있어 수술 후 재발하는 경우가 있다.

귀구슬 연골막은 이비인후과 영역에서 고막 성형술에 이용되어 왔으며 안과적으로는 안성형 분야에서 눈꺼풀 재건에 이용되고 있다.⁸⁻¹⁰ 채취가 쉽고 중배엽기원 조직으로 살아있는 세포를 이식하여 생착률이 높으며 다루기 쉽고 특히 상피화가 잘 이루어지는 장점들이 있다.¹⁰

본 증례는 괴사성 공막염으로 동종공막이식술, 심낭막이식술 및 양막이식술을 시행 받았으나 재발한 환자에서 자

가 귀구슬 연골막을 이용하여 병변의 빠른 재상피화, 혈관 생성 및 증상의 호전을 유도하여 이를 보고하는 바이다.

증례보고

5년 전 좌안의 군날개 제거술 시행 받은 과거력이 있는 75세 여자 환자로 4개월 전부터 발생한 좌안의 통증과 시력저하를 주소로 타 병원에서 괴사성 공막염으로 진단받고 동종공막이식술을 시행 받았다. 하지만 괴사부위의 진행으로 1개월 후 같은 부위에 제품화된 동종 심낭막 (Tutoplast®, IOP inc, Costa Mesa, CA, USA) 이식술, 자가 결막 및 양막 이식술을 시행 받았으나 2주 후, 이식편이 녹고 상피화가 이루어지지 않아 본원으로 의뢰되었다. 내원 시 좌안의 교정시력은 0.06, 안압은 10 mmHg이었고 세극 등 검사상 좌안 비측 부위에 자가결막편 아래로 심낭막이식편 및 공막이 용해되어 노출된 맥락막 조직이 관찰되었다(Fig. 1A). 이에 저자들은 공막 결손부위를 자가 귀구슬 연골막을 이용하여 재건하기로 하였다.

먼저 귀구슬 연골막을 이비인후과 전문의가 우측 귀에서 15×15 mm 크기로 채취하였다. 기준에 시행한 결막편과 용해된 심낭막조직을 제거하고 주위의 결막과 테논낭을 박리하였다. 이식된 심낭막조직 및 공막 조직이 용해되어 9×6 mm 크기로 맥락막이 노출되어 있었다(Fig. 1B). 채취한 귀구슬 연골막을 2겹으로 공막 결손 부위에 덮고 주변

■ 접수일: 2011년 2월 16일 ■ 심사통과일: 2011년 3월 15일
■ 게재허가일: 2011년 7월 7일

■ 책임저자: 김재찬
서울시 동작구 흑석동 224-1
중앙대학교병원 안과
Tel: 02-6299-1689, Fax: 02-6299-1077
E-mail: jck50ey@kornet.net

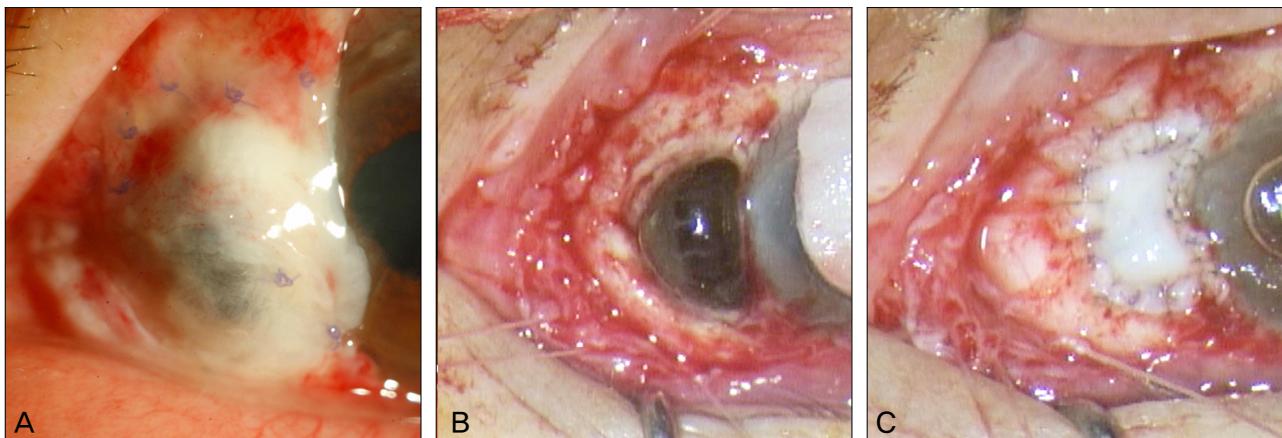


Figure 1. A photograph of 75-year-old woman with recurrent necrotizing scleritis of the left eye which occurred after pterygium removal 5 years earlier. (A) After undergoing sclera graft, pericardium graft, and amniotic membrane graft, sclera necrosis has still progressed and choroid is bulging out through the melted graft tissue. (B) Choroid is being exposed after removing the pericardium graft during surgery. (C) Autologous tragal perichondrium graft has been made.

공막에 봉합하여 이식하였다(Fig. 1C). 연골막 이식부위 위로 박리해 놓은 주변의 테논낭과 결막으로 덮은 후 양막이식술을 시행하였다.

수술 1주일 후 이식편 위로 혈관 생성이 이루어지고 재상피화가 빠르게 이루어진 것을 확인할 수 있었다. 3개월 후 귀구슬 연골막 이식편은 잘 유지되었으며 이식편 위로 결막화가 시작되었고 통증이 사라졌으며 좌안 교정시력은 0.4, 안압은 11 mmHg이었다. 수술 1년 후 이식된 귀구슬 연골막 위로 상피 결손 없이 결막화가 완벽히 이루어져 있음을 확인하였으며 특기할 만한 부작용은 없었다(Fig. 2).

고 찰

괴사성 공막염은 익상편 제거 수술의 부작용 중 하나로 비교적 많은 보고가 이루어져 있다. 익상편 제거 시 재발을 방지하기 위해 방사선 조사나 Mitomycin C (0.02%)를 수술 중 사용하는데, 이는 모세혈관의 내피세포의 miosis를 억제하는 작용을 하여 항재생 작용을 한다.^{11,12} 그러나 경우에 따라서는 부작용으로 수개월에서 수년 후 적용 부위 공막의 무혈관화, 괴사, 천공 및 안내염 등으로 진행하는 경우가 보고되고 있다.^{13,14} 또한 수술 중 상공막의 혈관을 지나치게 소작하거나 상공막을 제거한 경우 영양공급이 나빠져 익상편 절제술 후 공막괴사가 발생할 수 있는 것으로 알려져 있다.

공막은 콜라겐 섬유와 탄력 섬유가 일렬로 배열되어 있고 이들 섬유 사이에 점액다당류가 채워져 있으며 다른 조직에 비하여 세포성분이 아주 적은 섬유조직이다. 혈관은 긴뒤섬모체, 짧은뒤섬모체동맥과 와정맥이 분지없이 통과하며 윤부근처 모세혈관망만 있을 뿐 림프관도 없다. 그대

신 혈관이 풍부한 상공막과 하부 포도막에서 확산에 의하여 영양공급을 받는다.¹⁵ 이러한 무혈관성 구조는 공막이 외상 후 창상치유가 매우 취약한 원인이 되며, 주위조직에 의존하여 혈액을 공급받으므로 천공이 발생하거나 임박한 공막괴사가 발생한 경우 반드시 이식술을 통한 재건이 요구된다.

공막 괴사부위를 재건하기 위한 술식으로서 기존에 알려진 수술로는 동종공막이식술, 자가측두근막이식술, 자가결막이식술, 골막이식술, 부분층 진피이식술 및 양막이식술 등이 있다.^{2-7,16} 그러나 공막이식술 및 심낭막이식술의 경우 타인의 조직을 사용함으로써 이로 인한 면역거부 반응의 가능성이 있을 수 있고, 자가 결막이식술의 경우 반대안 혹은 병변안의 정상 결막편을 채취해야 하는 부담이 있다. 측두근막, 골막, 진피이식술 또한 채취 및 가공이 쉽지 않아 임상적으로 널리 이용되고 있지는 못한 실정이다. 양막이식술은 면역거부 반응이 없고 재상피화가 뛰어난 것으로 알려져 있으나 본 증례의 경우처럼 양막이식술을 포함한 여러 가지 수술을 시행하였음에도, 상피화가 이루어지지 않거나, 괴사부위의 상처가 계속 진행하는 난치성 증례도 존재한다.

귀구슬 연골막은 이비인후과 영역에서 고막성형술, 안과 영역에서 안검재건술 등에 이용되어 왔으나 공막 이식물로서 연구되고 이용된 적은 보고된 바 없다. 하지만 콜라겐 I, 콜라겐 II 섬유와 탄력섬유 및 Aggrecan을 비롯한 당단백으로 이루어져 있어, 공막 대체물질로서 우수한 물리적 성질을 제공할 수 있을 뿐만 아니라 귀구슬 연골막 안에는 줄기세포들이 존재하는 것으로 발표되고 있어 조직의 재건에 중요한 역할을 할 수 있을 것으로 판단된다(Fig. 3).^{8,17,18} Togo et al¹⁸은 토끼 귀구슬 연골막에서 추출한 연골막 세

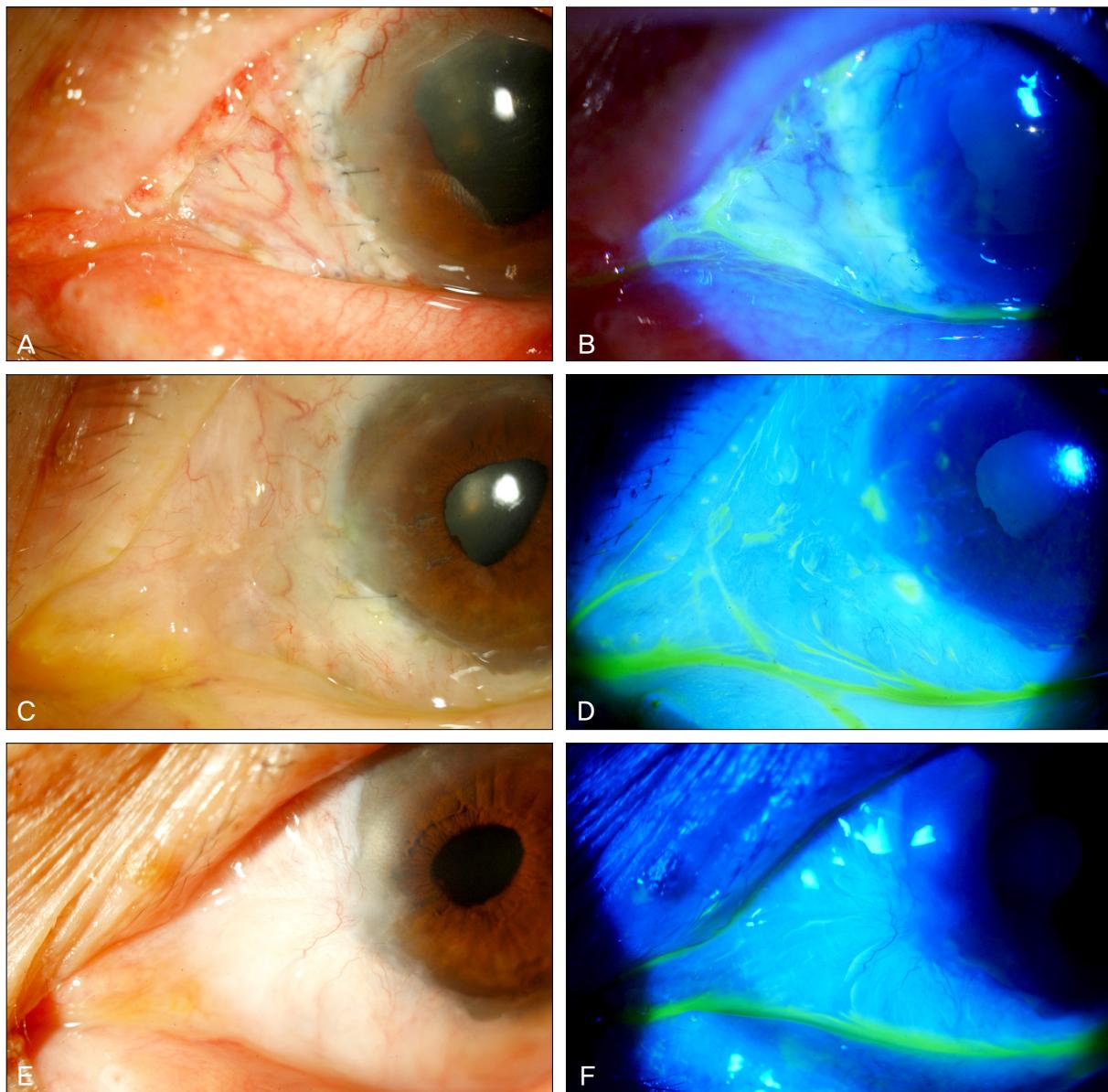


Figure 2. The photographs show postoperative recovery after the autologous tragal perichondrium graft in refractory necrotizing scleritis patient. (A, B) One week after the surgery, vascularization has developed over the grafted perichondrium, and grafted tissue has been epithelialized showing no defects on fluorescein staining. (C, D) After 3 months, conjunctivalization has started over the graft. (E, F) One year after the tragal perichondrium graft, conjunctivalization has been completed, and there was no complication.

포에서 연골세포, 지방세포 및 골세포로 분화시켰고, 연골 조직의 생성을 증명하여 중배엽 줄기세포로서의 귀구슬 연골막 세포의 가능성을 보고하였다.

이런 장점을 바탕으로 혈관이 없고 세포가 극히 적은 공막의 괴사성 병변에 자가 귀구슬 연골막을 이식한 결과, 이식편 위로 뚜렷한 혈관 형성이 형성되며 이식편의 생착 및 재상피화가 이루어졌다. 이런 빠른 재상피화와 혈관 생성은 기타 다른 공막 대체 조직들에서는 보이지 않는 자가 귀구슬 연골막 이식의 특징으로 중배엽 및 내피줄기세포가 그

역할을 할 것으로 생각한다. 이외에도 귀구슬 연골막은 채취가 쉽고, 흉터가 가려져서 미용적으로 우수하며 공막과 비슷한 정도의 두께 및 인장력을 갖고 있어 수술 시 큰 어려움 없이 다룰 수 있는 장점이 있다.

요약하면 본 증례를 통하여 자가 공막, 결막 및 양막이식술 등의 치료에도 반응하지 않는 난치성 괴사성 공막염 환자에서 자가 귀구슬 연골막 이식술은 혈관 생성 및 빠른 재상피화를 통해 효과적으로 괴사된 공막 조직을 대신하여 안구표면을 재형성 함을 알 수 있었다. 또한, 괴사성 공막염

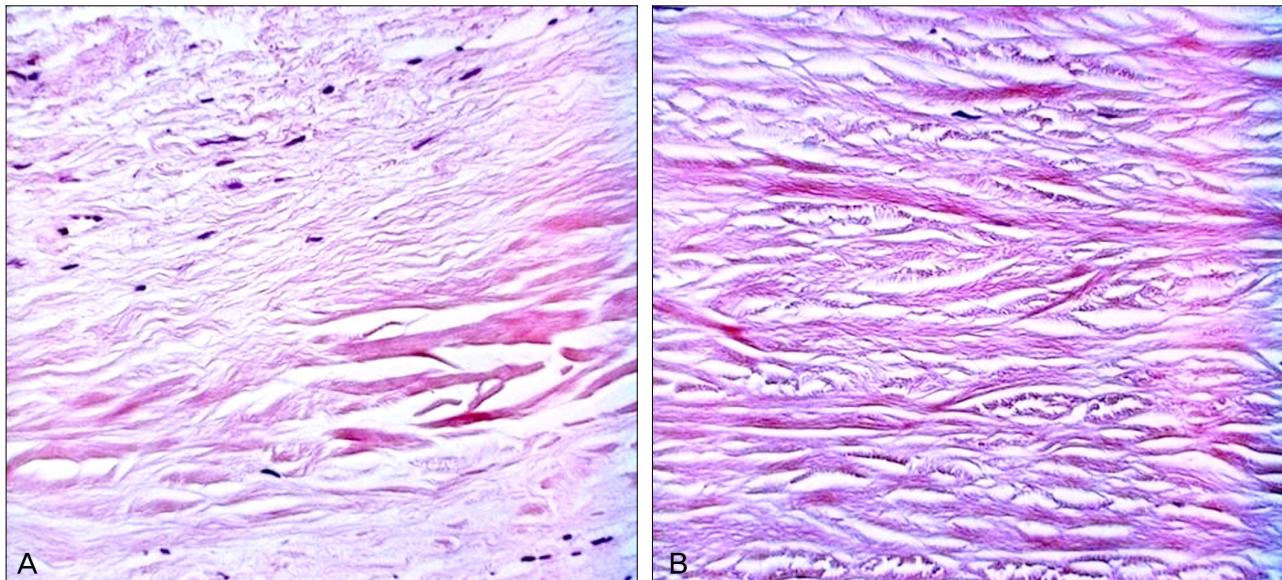


Figure 3. The hematoxylin and eosin staining of (A) human tragal perichondrium and (B) human sclera ($\times 200$). Both tissues show similar lamellar collagen fiber array (Photographs were taken by the authors).

뿐만 아니라 공막 결손이 발생한 다른 여러 증례에서도 빠른 안구표면 재건을 통해 도움이 될 것이라는 가능성을 제시할 수 있다. 이러한 본 증례는 향후 괴사성 공막염에서 자가 귀구슬 연골막이식의 활용에 좋은 기준을 제시하리라 기대되며, 향후 귀구슬 연골막의 구체적인 구성성분 및 특성에 관한 연구가 이루어져야 하며 더 많은 수의 환자 및 다양한 증례를 대상으로 하는 전향적인 연구가 이루어져야 할 필요가 있겠다.

참고문헌

- 1) O'Donoghue E, Lightman S, Tuft S, Watson P. Surgically induced necrotising sclerokeratitis (SINS) - precipitating factors and response to treatment. *Br J Ophthalmol* 1992;76:17-21.
- 2) Kim JH. Scleral grafting on necrotic scleritis following pterygium excision. *J Korean Ophthalmol Soc* 1982;23:29-39.
- 3) Na YS, Joo MJ, Kim JH. Results of scleral allografting on scleral necrosis following pterygium excision. *J Korean Ophthalmol Soc* 2005;46:402-9.
- 4) Ahn BH, Lee EJ, Sung KH. The use of a temporal muscle fascia in the treatment of scleral defect. *J Korean Ophthalmol Soc* 1983;24:785-91.
- 5) Gwag JY, Jang HG. Autogenous temporalis fascia grafting and conjunctival flap transposition in scleromalacia after pterygium excision. *J Korean Ophthalmol Soc* 2004;45:180-6.
- 6) Lee CO, Jong SH, Lee JJ. Autologous simple conjunctival graft and conjunctiva / tenon graft on focal scleromalacia. *J Korean Ophthalmol Soc* 1997;38:1737-41.
- 7) Muriello JA Jr, Fiore PM, Pokorny KS, Cinotti DJ. Use of split-thickness dermal graft in the surgical treatment of corneal and scleral defects. *Am J Ophthalmol* 1988;105:244-7.
- 8) Cavaliere M, Mottola G, Rondinelli M, Iemma M. Tragal cartilage in tympanoplasty: anatomic and functional results in 306 cases. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2009;29:27-32.
- 9) Yoon CH, Kim NJ, Lee MJ, et al. Correction of lower lid retraction using autologous ear cartilage graft. *J Korean Ophthalmol Soc* 2011;52:136-40.
- 10) Nigro MV, Friedhofer H, Natalino RJ, Ferreira MC. Comparative analysis of the influence of perichondrium on conjunctival epithelialization on conchal cartilage grafts in eyelid reconstruction: experimental study in rabbits. *Plast Reconstr Surg* 2009;123:55-63.
- 11) Hayasaka S, Noda S, Yamamoto Y, Setogawa T. Postoperative instillation of Mitomycin C in the treatment of recurrent pterygium. *Ophthalmic Surg* 1989;20:580-3.
- 12) Galanopoulos A, Snibson G, O'Day J. Necrotising anterior scleritis after pterygium surgery. *Aust NZ J Ophthalmol* 1994;22:167-73.
- 13) Tarr KH, Constable IJ. Late complications of pterygium treatment. *Br J Ophthalmol* 1980;64:496-505.
- 14) Rubinfeld RS, Pfister RR, Stein RM, et al. Serious complications of topical Mitomycin-C after pterygium surgery. *Ophthalmology* 1992;99:1647-54.
- 15) Aronson SB, Elliott JH. *Ocular Inflammation*, 1st ed. St. Louis: Mosby, 1972;210.
- 16) Jeoung JW, Yoon YM, Lee JL, et al. The effect of amniotic membrane transplantation on the treatment of necrotizing scleritis after pterygium excision. *J Korean Ophthalmol Soc* 2004;45:1981-8.
- 17) Madsen K, von der Mark K, van Menzel M, Friberg U. Analysis of collagen types synthesized by rabbit ear cartilage chondrocytes in vivo and in vitro. *Biochem J* 1984;221:189-96.
- 18) Togo T, Utani A, Naitoh M, et al. Identification of cartilage progenitor cells in the adult ear perichondrium: utilization for cartilage reconstruction. *Lab Invest* 2006;86:445-57.

=ABSTRACT=

Ocular Reconstruction Using Autologous Tragal Perichondrium for a Refractory Necrotizing Scleral Perforation: A Case Report

Hyun Koo, MD¹, Jae Hoon Jeong, MD², Yeoun Sook Chun, MD, PhD¹, Jae Chan Kim, MD, PhD¹

Department of Ophthalmology, Chung-Ang University College of Medicine¹, Seoul, Korea

Department of Ophthalmology, Seoul National University College of Medicine², Seoul, Korea

Purpose: To report the effectiveness of an autologous tragal perichondrium graft for a necrotizing scleritis case which was refractory to conventional surgery.

Case summary: A 75-year-old woman was referred to our clinic with recurrent necrotizing scleritis of the left eye which occurred after pterygium removal five years earlier. The patient underwent scleral graft, pericardium graft, and amniotic membrane graft in other clinics; however, necrosis of the sclera progressed. The best corrected visual acuity was 0.06, and choroidal tissue was nearly exposed below the melted pericardium graft in the nasal area. The authors harvested tragal perichondrium from the right ear, and the scleral defect was successfully reconstructed with an autologous tragal perichondrium graft. The graft showed rapid epithelialization and neovascularization within a week and conjunctivalization after three months. No complications have been observed up to one year after surgery.

Conclusions: Autologous tragal perichondrium graft is an effective treatment to alter necrotized sclera via neovascularization and rapid epithelialization in refractory necrotizing scleritis cases.

J Korean Ophthalmol Soc 2011;52(10):1227-1231

Key Words: Epithelialization, Necrotizing scleritis, Neovascularization, Tragal perichondrium

Address reprint requests to **Jae Chan Kim, MD, PhD**

Department of Ophthalmology, Chung-Ang University Hospital

#224-1 Heukseok-dong, Dongjak-gu, Seoul 156-755, Korea

Tel: 82-2-6299-1689, Fax: 82-2-6299-1077, E-mail: jck50ey@kornet.net