

## 베게너 육아종증 환자에서 시행한 성공적인 내시경적눈물주머니코안연결술

### A Case of Successful Endoscopic Dacryocystorhinostomy in Nasolacrimal Duct Obstruction with Wegener Granulomatosis

최시환 · 이민우 · 이종주 · 이성복

Si Hwan Choi, MD, PhD, Min Woo Lee, MD, Jong Joo Lee, MD, Sung Bok Lee, MD, PhD

충남대학교 의학전문대학원 안과학교실

*Department of Ophthalmology, Chungnam National University School of Medicine, Daejeon, Korea*

**Purpose:** To report a case of nasolacrimal duct obstruction occurring in a patient with Wegener granulomatosis treated successfully with endoscopic dacryocystorhinostomy.

**Case summary:** A 36-year-old female diagnosed with Wegener's granulomatosis 3 years prior and treated with rituximab and currently taking azathioprine 100 mg presented with a 1-year history of left epiphora and mucus in the left eye. Her left tear meniscus was higher than the right and was a hard stop with lacrimal probe when a lacrimal probing test was performed. Mucus was regurgitated during lacrimal irrigation and middle turbinate was not observed due to granuloma in the nasal cavity. Dacryocystography showed proximal nasolacrimal duct obstruction and a well-defined dacryocystocele 6 x 5 x 6 mm in size was observed on the left lacrimal fossa on facial 3D computed tomography. After synechiolysis for a granuloma in the nasal cavity, endoscopic dacryocystorhinostomy was performed and silastic sheet sutured on the nasal septum to prevent resynechia. After 2 weeks and 4 months, the silastic sheet and silicon tube were removed, respectively. The patient was asymptomatic following surgery and there was no regurgitation during lacrimal irrigation test. The ostium was patent at 5 months after surgery using the endoscopic dye test.

**Conclusions:** Nasolacrimal duct obstruction occurring in a patient with Wegener's granulomatosis can be treated effectively with endoscopic dacryocystorhinostomy even if the nasal cavity is narrow due to granuloma.

J Korean Ophthalmol Soc 2015;56(9):1454-1458

**Key Words:** Endoscopic dacryocystorhinostomy, External dacryocystorhinostomy, Nasolacrimal duct obstruction, Silastic sheet, Wegener's granulomatosis

■ Received: 2015. 4. 10.      ■ Revised: 2015. 5. 11.

■ Accepted: 2015. 7. 6.

■ 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

\* This study was presented as an e-poster at the 113th Annual  
Meeting of the Korean Ophthalmological Society 2015.

베게너 육아종증은 괴사성 혈관염 및 육아종성 염증을 일으키는 자가면역 질환으로 눈, 피부, 신경계 등 다양한 기관을 침범할 수 있으며, 상·하부 호흡기계와 콩팥에 가장 많이 침범하는 것으로 알려져 있다.<sup>1-3</sup> 각 장기에 침범하는 정도는 다양하여 위에 명시된 여러 기관에 동시에 침범하기도 하고 하나의 기관에 국한되어 나타나기도 한다.<sup>1-3</sup> 눈과 눈 부속기관의 침범도 적지 않으며 베게너 육아종증 환자의 약 29%에서 눈 및 눈 부속기관 침범이 일어나는 것으로 알려져 있다.<sup>3</sup> 콧속 조직의 괴사로 인해 오는 코눈물

관 폐쇄 또한 베게너 육아종증 환자의 약 10%에서 보인다고 알려져 있다.<sup>2</sup>

눈물주머니코안연결술은 안전하고 효과적인 수술이나, 베게너 환자군에서는 실패율과 합병증이 더 높은 것으로 알려져 있다.<sup>4,5</sup> 이전까지는 피부경유눈물주머니코안연결술이 주로 시도되었으나,<sup>5</sup> 최근에 내시경을 통한 코안으로의 접근을 통한 수술이 용이해지면서 코눈물관 폐쇄가 있는 베게너 환자들에게 또한 성공적인 치료법이 될 수 있다고 생각되나 아직까지 국내에서는 베게너 환자에서 내시경적 눈물주머니코안연결술을 시행한 보고가 없다.

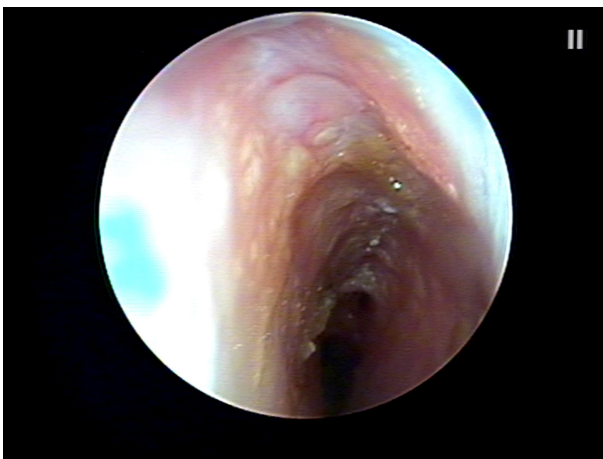
이에 저자들은 코눈물관 폐쇄가 있는 베게너 환자에게

성공적으로 시행한 내시경적눈물주머니코안연결술 1예를 보고하고자 한다.

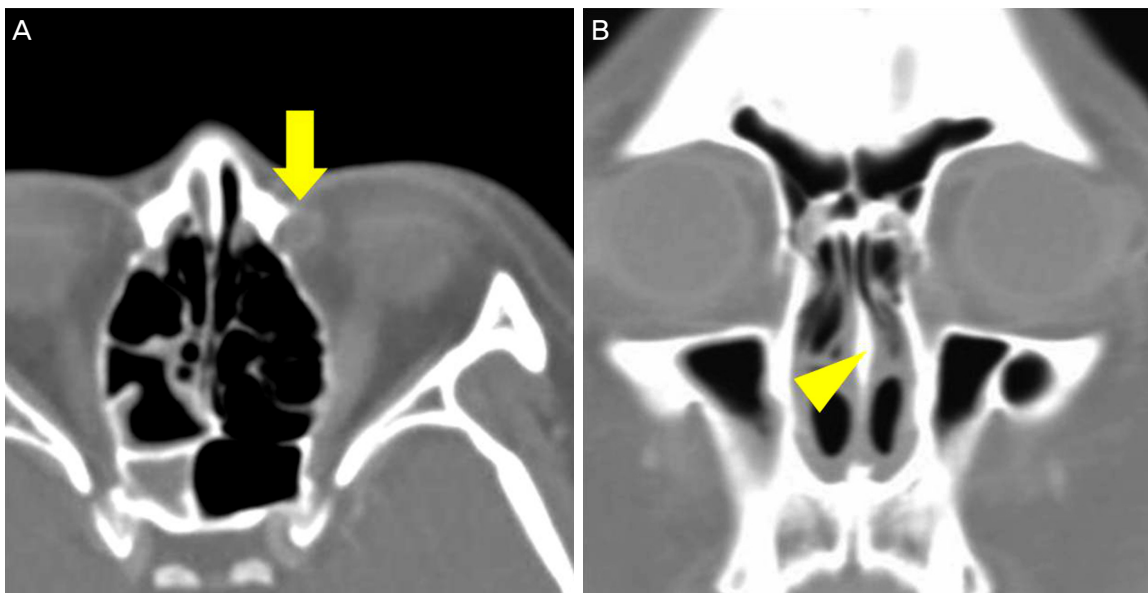
## 증례보고

35살 여자 환자가 1년 전부터 시작된 좌안에 눈물과 고름이 고이는 증상으로 외래에 내원하였다. 환자는 내원 3년 전 베게너 육아종증을 진단 받고 cyclophosphamide를 투여 받았고, 2차례의 rituximab 투여 뒤 안정된 상태로 접어들어 현재는 azathioprine 100 mg, losartan 50 mg을 복용 중이었다. 수술 전 시행한 혈액 검사와 흉부 방사선 검사에서 특이소견을 보이지 않아 신장 및 폐 기능 부전은 없다고 판단되었다.

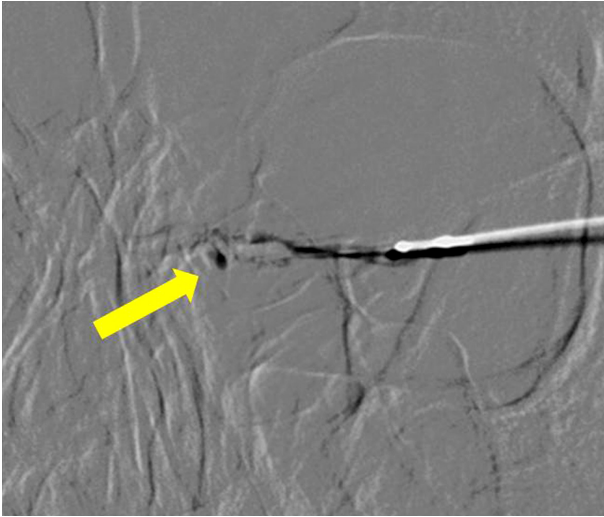
환자의 좌안은 붓거나 발적이 생긴 적은 없었으나 내원 1주일 전부터 좌안 눈물주머니 주변으로 압통을 호소하였다. 양쪽 비강은 육아종으로 인하여 중간 코선반이 관찰되지 않았으며, 육아종으로 인한 호흡의 불편감은 호소하지 않았다(Fig. 1). 좌안의 눈물띠 높이는 우안에 비해 높았으며 더듬자 검사에서 hard stop을 보였고, 눈물소관 관류술에서 점액이 역류되는 것이 관찰되었다. 안면부 3차원 단층 영상에서 좌측에 경계가 명확한 6×5×6 mm 크기의 눈물낭종이 관찰되었고 그 주위로 경한 염증소견이 보였으며, 눈물주머니오목과 연결될 비강 부위의 유착이 확인되었다(Fig. 2). 눈물주머니니조영술에서 좌안 근위부 코눈물관 폐쇄 소견을 확인하였다(Fig. 3). 이상의 소견으로 좌안의 코눈물관 폐쇄 및 비강내 육아종으로 진단하였고, 내시경적눈물주머니



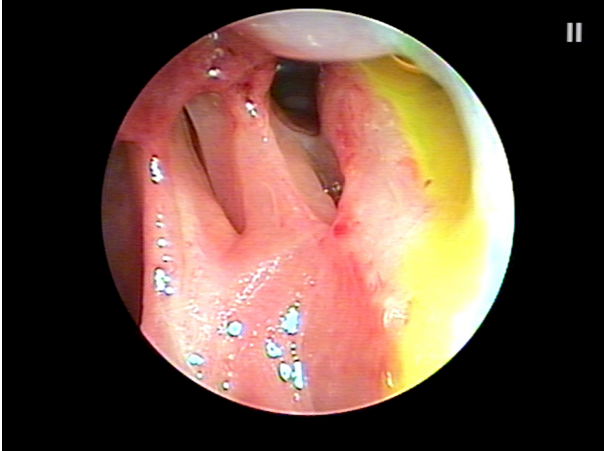
**Figure 1.** Left nasal cavity. The middle turbinate is not observed because of granuloma between the nasal septum and lateral wall.



**Figure 2.** Facial computed tomography. (A) Axial view. The dilated lacrimal sac enhanced by inflammation is seen on the lacrimal fossa (arrow). (B) Coronal view shows narrow nasal cavity filled with granulation tissue (arrowhead).



**Figure 3.** Dacryocystogram. It shows the small lacrimal sac with proximal nasolacrimal duct obstruction (arrow).



**Figure 4.** The nasal cavity at 5 months after surgery. Fluorescein dye flows well through the ostium.

니코안연결술 및 비강내 유착해리술을 시행하기로 하였다.

수술은 전신마취하에 시행하였다. 출혈 감소 및 시야 확보를 위하여 1:10,000 epinephrine을 거즈에 적셔 비점막을 수축시킨 후 유리체절제술용 23-gauge 광원을 삽입한 뒤 코내시경을 통하여 눈물주머니 위치를 비강 안에서 확인하고자 하였으나, 비강을 채우고 있는 육아종에 의해 눈물주머니 위치는 확인되지 않았다. 육아종 부위에 1:100,000 epinephrine을 국소 마취한 뒤, 광원의 위치가 확인될 때까지 단극성 소작기를 이용하여 비중격과 외측 벽 사이의 육아종을 제거하였다. 광원의 위치가 확인된 이후에는 일반적인 내시경적눈물주머니니코안연결술의 과정에 따라 다음과 같이 진행하였다. 단극성 소작기를 이용해 만들어진 골공의 크기에 맞게 비점막을 추가로 절개하고 elevator를 이용해 점막을 제거하였다. Kerrison punch를 이용하여 눈물주

머니오목을 이루고 있는 뼈를 제거하여 눈물주머니를 노출시킨 뒤 crescent knife로 절개하고 ethmoid forceps를 이용하여 눈물주머니의 내벽을 제거하였다. 아래 눈물점을 통해 관류술을 시행하여 잘 관류되는 것을 확인한 뒤 위, 아래 눈물점을 통해 실리콘 관을 삽입하고 과도한 긴장이 생기지 않도록 주의하여 매듭을 만들었다. 비중격과 만들어진 골공 사이의 유착을 방지하기 위하여 비중격에 silastic sheet를 대고 3/0 black silk를 이용하여 봉합하였다. 출혈 방지 및 감소를 목적으로 nasopore에 ofloxacin 연고를 바른 후 비강에 채운 뒤 nasopore를 triamcinolone으로 적신 후 수술을 마쳤다.

수술 후 silastic sheet는 2주 후, 실리콘 관은 4개월 뒤에 제거하였다. 술 후 5개월까지 좌안 눈물흘림 증상이 없었으며 눈물소관 관류술에서 관류가 잘 되었고 골공을 통해 fluorescein dye가 잘 흘러 만족할 만한 결과를 얻었다(Fig. 4).

## 고 찰

일반적으로 피부경유눈물주머니니코안연결술은 눈물주머니가 수술 중 완전히 노출되기 때문에 눈물주머니 내의 병인을 파악할 수 있고 골공을 더 크게 만들 수 있는 장점이 있으나 내시경적눈물주머니니코안연결술보다 술 중 출혈이 더 많고 피부에 상처가 남으며 안쪽 눈구석 구조를 변화시켜 눈물펌프기능에 영향을 미칠 수 있다. 그에 비해 내시경적눈물주머니니코안연결술은 피부에 상처를 남기지 않고 눈물펌프 기능에 영향을 덜 끼치며 코의 해부학적 이상을 함께 교정할 수 있고 출혈이 적은 장점이 있다. 하지만 술자마다 성공률이 차이가 있으며 육아종과 점막하 섬유화로 인해 피부경유눈물주머니니코안연결술보다 성공률이 낮은 것으로 알려져 있다.<sup>1</sup>

베게너 육아종증은 여러 장기를 침범하는 자가면역 질환으로 백인에게 훨씬 더 많으며 50대에 가장 높은 유병률을 보이고, 연 발생률이 100만 명당 4명에서 8.5명이다.<sup>2</sup> 그중 안외를 침범하는 경우가 50-60%까지 보고된 바 있으며 상공막염 및 공막염, 각막염, 포도막염, 망막염, 망막괴사 및 박리 등 다양한 눈 및 눈 부속기관에 침범하는 것으로 알려져 있다.<sup>2</sup> 그중 약 10%의 환자에게 비인두 침범으로 인한 코눈물관 폐쇄가 있으며 이는 만성 눈물주머니염과 점액종형성을 유발하기도 한다.<sup>2,6</sup> 이렇게 비인두를 침범하는 베게너 육아종증의 특징 때문에 내시경적눈물주머니니코안연결술 후의 성공률이 원발성 코눈물관폐쇄보다 낮을 수 있다.<sup>4,6</sup>

Kwan and Rose<sup>7</sup>는 위와 같은 이유와 골공을 더 크게 만들 수 있다는 장점을 이유로 베게너 육아종증 환자의 코눈

물관 폐쇄 시 피부경유눈물주머니코안연결술을 추천하였다. 하지만 Morris et al<sup>3</sup>은 베게너육아종증 환자의 코눈물관 폐쇄에서 내시경적눈물주머니코안연결술을 통한 성공적인 치료 4예를 들면서 내시경적눈물주머니코안연결술 또한 베게너 육아종증 환자의 코눈물관 폐쇄에서 적절한 치료법이 될 수 있음을 보고한 바 있다.

하지만 아직까지 국내에서는 베게너 육아종증 환자에서의 눈물주머니코안연결술의 결과에 대하여 보고된 바가 없다. 저자들은 베게너 육아종증 환자에서 발생한 코눈물관 폐쇄를 치료하기 위해 내시경적눈물주머니코안연결술을 시도하여 좋은 결과를 얻었다. 이 환자의 경우 수술 전 코 내시경 검사에서 육아종에 의해 눈물주머니오목에 해당하는 부위를 관찰할 수 없었는데, 이런 경우에는 안면부 3차원 단층 촬영을 시행하여 눈물주머니오목에 해당하는 부위의 유착을 제거했을 때 충분한 공간을 확보할 수 있는지 확인하는 것이 필요하다고 생각되며, 수술 중에 눈물주머니오목 주위의 유착을 충분히 제거하여 눈물주머니를 충분히 노출시키고 술 후 비중격과 비강 외벽 사이의 재유착이 생기지 않도록 충분한 공간을 확보해야 할 것이다. 또한 눈물주머니코안연결술을 마치고 재유착을 막기 위하여 silastic sheet를 사용한 것도 수술 성공에 도움이 되었을 것으로 생각한다. 이러한 요인들의 중요성에 대하여 더 많은 증례를 통한 연구가 필요할 것으로 생각된다. 또 Eloy et al<sup>8</sup>이 보고한 바와 같이 본 증례에서도 안정된 상태의 베게너 육아종증 환자에서 수술을 시행했기 때문에 눈물낭종의 육아종 재발 및 확장과 같은 합병증의 발생 없이 좋은 결과를 얻을

수 있었다고 생각된다.

결론적으로 저자들은 베게너 육아종증 환자에게 시행된 성공적인 내시경적눈물주머니코안연결술을 국내에서 처음으로 보고하는 바이며, 베게너 육아종증이 안정된 상태에서의 수술 시행, 술 전 비강 내 유착의 충분한 제거, silastic sheet를 이용하여 시행한 유착방지술이 술 후 재유착에 의한 수술 실패를 줄이는 데 도움이 될 것으로 생각된다.

## REFERENCES

- 1) Kwan AS, Rose GE. Lacrimal drainage surgery in Wegener's granulomatosis. Br J Ophthalmol 2000;84:329-31.
- 2) Pakrou N, Selva D, Leibovitch I. Wegener's granulomatosis: Ophthalmic manifestations and management. Semin Arthritis Rheum 2006;35:284-92.
- 3) Morris DS, Selva D, Dolman PJ. Endonasal dacryocystorhinostomy in Wegener granulomatosis. Arch Ophtalmol 2010;128:1212-4.
- 4) Hardwig PW, Bartley GB, Garrity JA. Surgical management of nasolacrimal duct obstruction in patients with Wegener's granulomatosis. Ophthalmology 1992;99:133-9.
- 5) Glatt HJ, Putterman AM. Dacryocystorhinostomy in Wegener's granulomatosis. Ophthal Plast Reconstr Surg 1990;6:207-10.
- 6) Jordan DR, Miller D, Anderson RL. Wound necrosis following dacryocystorhinostomy in patients with Wegener's granulomatosis. Ophthalmic Surg 1987;18:800-3.
- 7) Kwan AS, Rose GE. Orbital Wegener's granuloma resulting from direct extension of nasal disease through a surgical rhinostomy. Br J Ophthalmol 1998;82:198.
- 8) Eloy P, Leruth E, Bertrand B, Rombaux PH. Successful endonasal dacryocystorhinostomy in a patient with Wegener's granulomatosis. Clin Ophthalmol 2009;3:651-6.

= 국문초록 =

## 베게너 육아종증 환자에서 시행한 성공적인 내시경적눈물주머니코안연결술

**목적:** 베게너 육아종증 환자에게 발생한 코눈물관 폐쇄를 내시경적눈물주머니코안연결술로 치료한 1예를 보고하고자 한다.

**증례요약:** 내원 3년 전 베게너 육아종증을 진단 받고 rituximab 투여 뒤 현재는 안정된 상태로 azathioprine 100 mg을 복용 중인 36세 여자 환자가 1년 전부터 시작된 좌안 눈물 흐름 및 고름이 차는 증상을 주소로 내원하였다. 초진 시 좌안의 눈물띠 높이가 우안에 비해 높았으며 더듬자 검사상 hard stop, 눈물소관 관류술상 점액이 역류되었고, 비강은 육아종에 의하여 중간 코선반이 관찰되지 않았다. 눈물주머니조영술에서 좌안 근위부 코눈물관 폐쇄 소견을 보였으며 안면부 3차원 단층 영상에선 좌측 눈물주머니오목에 경계가 명확한 6×5×6 mm 크기의 눈물낭종이 관찰되었다. 비강내 육아종에 대하여 유착해리술을 시행한 후 내시경적눈물주머니코안연결술을 시행하였고, 재유착을 예방할 목적으로 silastic sheet를 비중격에 봉합하였다. Silastic sheet는 2주 후, 실리콘 관은 4개월째에 제거하였다. 술 후 5개월째 좌안 눈물흘림은 없었으며, 눈물소관 관류술에서 잘 관류되었고 골공을 통해 fluorescein dye가 잘 흘러 만족할 만한 결과를 얻었다.

**결론:** 베게너 육아종증 환자에게 발생한 코눈물관 폐쇄에서 육아종으로 비강이 좁아져 있더라도 내시경적눈물주머니코안연결술로 치료가 가능하다고 생각된다.

〈대한안과학회지 2015;56(9):1454-1458〉