

우측 윗눈꺼풀 외측 피부에서 발견된 선천 눈물샘소관 샷길 1예

A Case of Congenital Lacrimal Ductule Fistula on Lateral Skin to the Right Upper Eyelid

한가희 · 정인권 · 이도형 · 김진형 · 서지원

Ga Hee Han, MD, In Kwon Chung, MD, Do Hyung Lee, MD, PhD, Jin Hyoung Kim, MD, PhD, Ji Won Seo, MD

인제대학교 의과대학 일산백병원 안과학교실

Department of Ophthalmology, Ilsan Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Goyang, Korea

Purpose: To present a rare case of tear drainage since birth from a lacrimal ductule fistula, which is the first report in the Republic of Korea.

Case summary: A 3-month-old female who presented with discharge of clear fluid from a small skin opening lateral to the right upper eyelid since birth visited the outpatient clinic. The patient was healthy and was receiving no medication. She was born on gestation age 35 weeks and 3 days. No other specific history or other ophthalmic abnormality was found. On examination, a small skin orifice approximately 2 mm diameter and no sign of infection or discoloration was observed. To relieve this symptom, the patient underwent a fistulectomy under general anesthesia. Histopathological examination of the surgical specimen was performed. The patient's symptom subsided postoperatively without recurrence.

Conclusions: This is the first report in the Republic of Korea of tears draining from a lacrimal ductule fistula since birth and the subsequent clinical treatment procedures.

J Korean Ophthalmol Soc 2018;59(12):1181-1184

Keywords: Congenital abnormality, Lacrimal ductule fistula, Lacrimal gland

선천 눈물샘소관 샷길은 눈물샘에서 기원하는 샷길로 눈물샘에 가까이 위치하여 피부층에 개구부를 보이며, 개구부에 눈물이 고이거나 털(hair)이 관찰될 수 있다.¹ 선천 눈물샘소관 샷길은 개구부의 해부학적 위치에 따라 크게 두 가지로 분류되는데, 눈꺼풀판 그룹(the tarsal group)과 가쪽 그룹(the lateral group)으로 나뉜다. 눈꺼풀판 그룹의 경우, 개구부가 가쪽눈구석(lateral canthus) 근처나 윗눈꺼풀의

눈꺼풀판의 상측 눈꺼풀테 근처에 위치하고 있으며, 주로 털(hair)이 같이 관찰되는 것이 특징이다. 가쪽 그룹(the lateral group)의 경우, 개구부는 주로 가쪽눈구석(lateral canthus)로부터 거리가 약 3.0-35.0 mm 가량 떨어져 있으며, 보통 털(hair)을 동반하지 않는다.² 이는 1980년 Blanksma and vd Pol²에 의해 처음 보고되었으며, 그 이후 국외에서 약 10여 차례 보고된 적이 있으나, 국내에서는 아직까지 보고된 바가 없다. 이에 저자들은 선천 눈물샘소관 샷길 및 이의 치료 과정을 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

■ Received: 2018. 7. 19. ■ Revised: 2018. 9. 30.
■ Accepted: 2018. 11. 25.

■ Address reprint requests to **Ji Won Seo, MD**
Department of Ophthalmology, Inje University Ilsan Paik Hospital, #170 Juhwa-ro, Ilsanseo-gu, Goyang 10380, Korea
Tel: 82-31-910-7240, Fax: 82-31-911-7241
E-mail: jiwonidat@naver.com

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

증례보고

우측 윗눈꺼풀의 가쪽눈구석(lateral canthus) 근처에 위치한 피부구멍에 투명한 액체 고임을 주소로 생후 3개월

여아가 내원하였다. 재태연령 35주 3일에 태어났으며, 그의 특이 과거 병력이나 외상력은 없었고 다른 안과적인 이상은 발견되지 않았다. 이학적 검사상 내원 당시 우안 가쪽 눈구석으로부터 상 외측 방향으로 4-5 mm 떨어진 윗눈꺼풀의 피부에 무색의 맑은 액체가 고인 약 2 mm 직경의 개구부가 보였다. 개구부 주변으로 감염 소견은 보이지 않았고, 개구부에 털(hair)이 관찰되었다(Fig. 1).

안와 자기공명영상검사에서 우측 눈물샘으로부터 윗눈꺼풀 상외측으로 이어져 있는 셋길이 관찰되었다. 셋길은 T1 강조 및 지방억제 영상에서 고신호 강도음영을 보였다(Fig. 1). 임상적 및 영상학적 소견을 종합해 볼 때 선천 눈물샘소관 셋길을 강하게 의심할 수 있었고, 치료를 위해 전신마취하 눈물소관 셋길의 완전절제 및 병리생검을 계획하였다. 전신마취 후 개구부 주변으로 2% 리도카인과 1:100,000 에피네프린을 피하 주사하였다. 개구부에 Bowmann 탐침자

00번을 대어 개구부 주변을 따라 피부절개 후 병변의 전 절제를 위해 눈물샘에 도달할 때까지 셋길 주변을 박리 후 셋길을 전부 제거하였다. 검체는 길이 약 1.1 cm 직경 0.2 cm로 관찰되었다(Fig. 2). Nylon 6-0로 피부를 단속 봉합을 시행하였으며 Ofloxacin 연고(Tarivid®, Santen pharmaceutical co., Ltd., Osaka, Japan)를 수술부위에 도포하였다. 조직학적 소견상 내경이 상피세포로 이루어져 있으며 눈물샘 조직(lacrimal gland tissue)과 연결된 관(tract)이 보였다. 먼 쪽 부분(distal ductule)에서는 모낭(hair follicle)을 동반한 편평 상피세포(squamous epithelium)가 관찰되었으며, 가까운 쪽 부분(proximal ductule)에는 관상 상피세포(tubular epithelium)가 관찰되었고, 이에 인접하여 눈물샘조직(lacrimal gland tissue)이 확인되었다(Fig. 3). 수술 후 눈물로 추정되는 액체 고임은 호전되었으며, 수술 후 12개월간의 추적관찰기간 동안 재발은 보이지 않았다(Fig. 1).

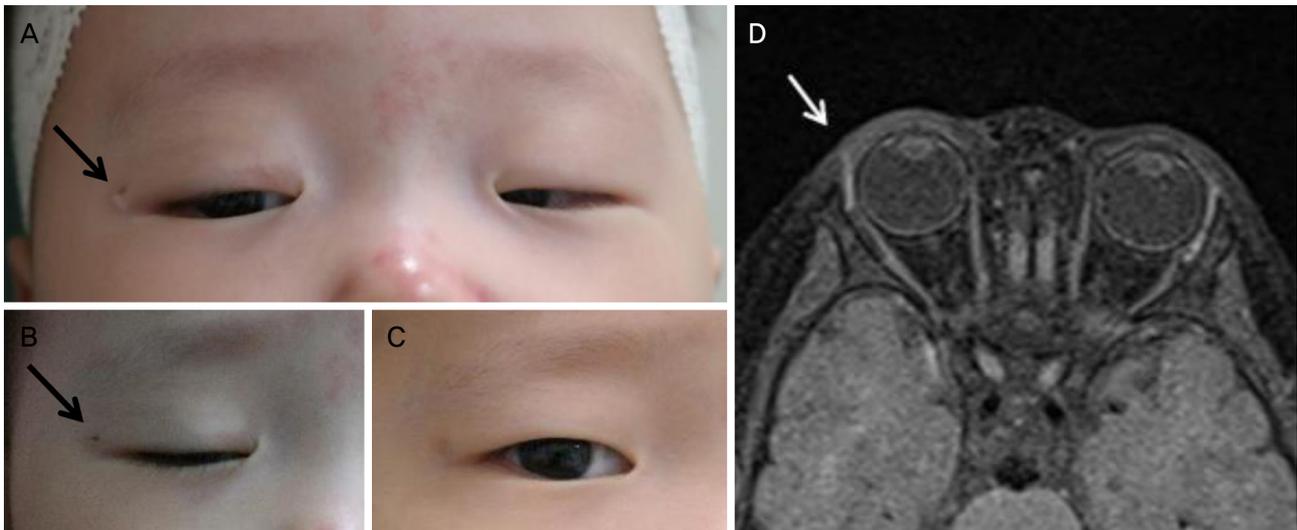


Figure 1. These are the patient's clinical photographs and orbit magnetic resonance images. Clinical photograph demonstrates the skin dimpling (black arrow) with clear fluid and hair on superolateral side of the right lateral canthus (A, B). Postoperative photograph at 12 months after procedure showing a good cosmetic appearance and no recurrence (C). The tract from the right lacrimal gland (white arrow) shows high intensity in the T1-weighted fat suppressed images (D).



Figure 2. Intraoperative findings. Incision of the skin surrounding the orifice (A), dissection of the fistula (B). There was gross specimen including fistula, measuring about 1.1 cm and 0.2 cm (C).

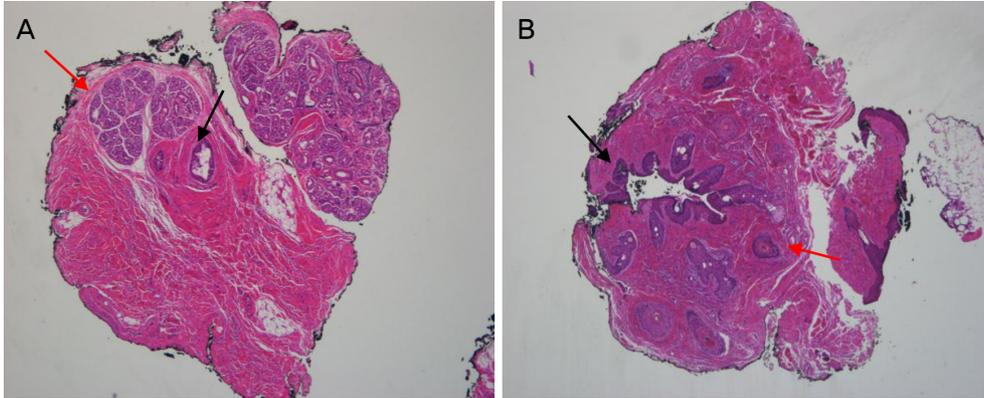


Figure 3. Histological examination. (A) Low power (×40) view of proximal ductule (black arrow) lined by columnar epithelial cells including lacrimal gland tissue (red arrow) (H&E stain, ×40). (B) Low power (×40) view of distal ductule (black arrow) showing squamous epithelial lining and the presence of normal hair follicles (red arrow) (H&E stain, ×40). H&E = hematoxylin-eosin.

고 찰

눈물샘소관 샛길은 외배엽의 비정상적인 발달로 인해 발생하며, 외상, 수술 등으로도 나타날 수 있다고 보고되고 있다.^{3,4} 1855년 Mackenzie⁵가 눈물샘에 가까이 위치하여 있는 피하 개구부에 대한 증례를 보고하였고, 눈물샘에서 기원하는 샛길이라고 추측하였다. 1964년 Duke-Elder⁶는 이를 비정상적인 눈물샘소관 기형(anomalous lacrimal ductile)이라고 명명하였고, Carpenter and Annamunthodo⁷ 또한 이는 눈물샘에서 기원한 샛길이며 이는 발생학적으로 관련이 있다고 하였다.

눈물샘은 상외측 결막구석(superotemporal fornix)의 바닥 결막세포(basal conjunctival cell)에서 기원한다. 5-8개의 눈(bud)이 중배엽으로 둘러싸이고, 추후 낭포를 형성하기 위해 터널화된다. 눈꺼풀올림근 건막(levator aponeurosis)이 발달되면서 눈물샘을 안와엽(orbital lobe)과 눈꺼풀엽(palpebral lobe)으로 나눈다. 주 눈물샘소관이 안와엽(orbital lobe)으로 이어지며, 눈꺼풀엽을 지나고 위쪽 결막 구석의 가쪽 부분으로 열린다. 하지만 더 큰 하외측 소관은 주 배출구(main opening)의 아래쪽과 가쪽 부분의 눈물을 내보내기 위해 눈물샘의 가쪽 부분을 가로지른다.⁸

Blanksma and vd Pol²은 눈물샘소관 기형을 개구부의 위치와 모양에 따라 크게 두 가지로 분류하였다. 눈꺼풀판 그룹(the tarsal group)은 개구부가 윗눈꺼풀의 눈꺼풀판(tarsal plate)의 위쪽 경계부위 근처에 위치하여 있고, 개구부에 털(hair)이 같이 발견되는 것이 특징이다. 이는 주 눈물샘소관(main lacrimal duct)의 위쪽결막구석(superior fornix) 눈물샘소관(ductile)의 비정상적인 발달과정에 의해 발생한다.

가쪽 그룹(the lateral group)은 개구부가 가쪽눈구석(lateral canthus)에서 3.0-35.0 mm 떨어져 위치하며 모양을 동반하지 않는다.² 본 증례의 경우 위치 및 조직학적 소견상 모양을 동반한 것을 고려할 때 눈꺼풀 판 그룹(the tarsal group)으로 분리할 수 있다.

기존 보고들을 종합해 볼 때 눈물샘 소관 샛길의 치료는 수술적 제거이다. 또한 재발을 막기 위해 수술적 제거 시 샛길의 일부제거가 아닌 눈물샘 조직 일부까지 포함한 완전 절제가 필요하다.² 본 증례에서도 눈물샘 일부를 포함한 눈물샘 소관 샛길의 완전 절제가 술 후 재발을 막는 데 기여하였을 것이라 생각된다.

REFERENCES

- 1) Cogen MS, Lewis AR, Kelly AG. Anomalous lacrimal ductule: case report and review. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus* 1994;31:327-9.
- 2) Blanksma LJ, vd Pol BA. Congenital fistulae of the lacrimal gland. *Br J Ophthalmol* 1980;64:515-7.
- 3) Kural G, Serifoglu A, Ertüre E. A case of aberrant lacrimal gland and fistula. *Br J Ophthalmol* 1989;73:376-7.
- 4) Leelapatranurak K, Kim JH, Woo KI, Kim YD. Lacrimal ductule fistula: a new complication of cosmetic lateral canthoplasty. *Aesthetic Plast Surg* 2013;37:892-5.
- 5) Mackenzie W. A practical treatise on the disease of the eye, 4th ed. London: Longman, 1855; 140.
- 6) Duke-Elder S. Normal and abnormal development. In: Duke-Elder S, ed. *System of Ophthalmology*, 1st ed. London: Henry Kimpton, 1964; v. 3. Part 2. 921-3.
- 7) Carpenter R, Annamunthodo H. Anomalous lacrimal ductule. Case report and review. *Br J Ophthalmol* 1966;50:159-61.
- 8) Desai HG. Congenital fistula of the lacrimal gland. *Br J Ophthalmol* 1967;51:206-7.

= 국문초록 =

우측 윗눈꺼풀 외측 피부에서 발견된 선천 눈물샘소관 샷길 1예

목적: 선천 눈물샘소관 샷길은 드물게 보고되었으며 아직까지 국내에서는 보고된 바 없다. 본 증례에서는 선천 눈물샘소관 샷길을 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 우측 윗눈꺼풀 외측 피부에 위치한 구멍을 통해 투명한 액체 고임을 주소로 생후 3개월 여아가 내원하였다. 재태연령 35주 3일에 태어났으며, 그 외 특이 과거력은 없었고 다른 안과적인 이상은 발견되지 않았다. 내원 당시 우측 상안검 외측에서 무색의 투명한 액체가 고인 직경 약 2 mm 크기의 개구부가 보였으며, 개구부 주변으로 감염을 의심할 만한 소견은 없었다. 눈물고임 증상을 동반한 눈물소관 샷길 소견으로 전신마취하 눈물소관 샷길의 완전절제 및 병리생검을 시행하였으며, 조직학적 소견상 눈물소관 샷길을 진단하였다. 수술 후 우측 윗눈꺼풀 외측 눈물흘림은 호전되었고, 재발 소견은 관찰되지 않았다.

결론: 현재까지 국내에서 보고된 적 없는 선천 눈물샘소관 샷길 및 이의 치료 과정을 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.
(대한안과학회지 2018;59(12):1181-1184)

한가희 / Ga Hee Han

인제대학교 의과대학 일산백병원 안과학교실
Department of Ophthalmology,
Ilsan Paik Hospital,
Inje University College of Medicine

