

베체트병에서 백내장수술 후 발생한 황반부종 및 혈관염을 덱사메타손삽입술로 치료한 1예

Intravitreal Dexamethasone Implantation in a Behcet's Disease Patient with Macular Edema, Vasculitis after Cataract Surgery

이지영 · 나 호 · 김은철 · 강남여 · 백지원

Ji Young Lee, MD, Ho Ra, MD, PhD, Eun Chul Kim, MD, PhD, Nam Yeo Kang, MD, PhD,
Ji Won Baek, MD, PhD

가톨릭대학교 의과대학 부천성모병원 안과학교실

Department of Ophthalmology, Bucheon St. Mary's Hospital, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Bucheon, Korea

Purpose: To report a case of macular edema and retinal vasculitis treated with intravitreal dexamethasone implantation in a Behcet's disease patient after cataract surgery.

Case summary: A 26-year-old male with Behcet's disease, without recurrence of uveitis for 3 months, underwent phacoemulsification and posterior chamber intraocular lens implantation for a cataract in the left eye. The preoperative best corrected visual acuity (BCVA) of the left eye was 0.15. At day 1 after surgery, his BCVA was 0.4, and slit lamp examination of his left eye revealed a mild anterior chamber reaction. At 1 week after surgery, he presented with left vision impairment, his BCVA was 0.04, and mild inflammation was observed in both the anterior chamber and the vitreous in his left eye. Unilateral macular edema was confirmed with optical coherence tomography, and fluorescein angiography revealed retinal vasculitis on the fovea and peripheral retina. Intravitreal dexamethasone implantation was performed in his left eye, 1 month after treatment, the macular edema and retinal vasculitis had improved, and the BCVA of his left eye was 0.8.

Conclusions: In patients with Behcet's disease, intravitreal dexamethasone implantation can be an effective treatment option for macular edema and retinal vasculitis after cataract surgery.

J Korean Ophthalmol Soc 2019;60(2):195-200

Keywords: Behcet disease, Dexamethasone, Macular edema, Vasculitis

베체트병은 포도막염, 구강 및 성기 궤양, 피부 병변을 주된 증상으로 하는 만성적인 재발성 전신질환으로 만성 재발포도막염에 의해 홍채의 후방유착, 맥락망막위축, 시신

경의 위축, 속발백내장, 이차성 녹내장 등의 안증상이 동반된다.¹ 베체트병은 우리나라에서는 19.3%에서 안증상이 주 증상으로 나타났으며, 50.9%에서 안증상이 동반되는 것으로 보고된 바 있다.^{2,3}

백내장은 포도막염의 흔한 합병증으로 만성적인 안내 염증, 염증을 치료하기 위한 스테로이드 치료에 의해 유발되며, 안증상이 동반된 베체트병 환자의 23.6%에서 속발백내장이 나타났다는 보고가 있다.³ 이러한 속발백내장에서 백내장수술은 시력 회복과 백내장으로 인해 망막 상태를 잘 관찰할 수 없을 때 후안부 염증의 관리를 위해서도 요구된다. 백내장양외적출술보다는 수정체유화술과 인공수정체후

■ Received: 2018. 7. 26. ■ Revised: 2018. 9. 13.

■ Accepted: 2019. 1. 24.

■ Address reprint requests to **Ji Won Baek, MD, PhD**
Department of Ophthalmology, Bucheon St. Mary's Hospital,
#327 Sosa-ro, Bucheon 14647, Korea
Tel: 82-32-340-2125, Fax: 82-32-340-2126
E-mail: md.jiwon@gmail.com

* 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.

방습입술이 포도막염 환자에서 좋은 수술 방법으로 여겨지고 있으며 시력 예후에 수술 전후 염증 조절의 정도가 중요하게 작용하는 것으로 알려져 있다.⁴ 저자들은 3개월간 포도막염의 재발이 없었으며 경구 면역억제제 복용을 지속하는 상태에서 백내장수술 후 발생한 황반부종 및 망막혈관염 소견을 보이는 베체트병 환자에서 유리체강내 텍사메타손삽입술로 빠른 회복을 보였기에 이를 보고하고자 한다.

증례보고

4개월 전부터 양안 포도막염이 여러 차례 재발한 과거력이 있는 26세 남자가 2주 전 발생한 양안 시력저하로 내원하였다. 현재 사용 중인 약물은 없었으며, 문진 시 1년 전부터 1달에 1회 가량의 반복적인 구강 궤양이 있다는 것을 알 수 있었다. 우안 교정시력 0.8, 좌안 교정시력 0.3이었으며 안압은 우안 14 mmHg, 좌안 13 mmHg으로 측정되었다. 세극등검사에서 전방에는 뚜렷한 염증세포가 없었으며 양안에 유리체염 소견이 관찰되었다. 안저검사상에서 양안의

망막혈관염 소견이 보였으며 형광안저혈관조영술에서 형광누출과 혈관벽의 염색 소견을 보였다(Fig. 1). 스테로이드 점안액(0.5% loteprednol, Lotemax[®], Bausch & Lomb, Tampa, FL, USA)을 처방하여 2시간마다 양안에 점안하도록 하였고 경구 스테로이드 40 mg을 처방하였으며, 전신질환과의 관련성을 알아보기 위해 류마티스내과에 의뢰하였다. 류마티스내과에서 시행한 검사에서 human leukocyte antigen B51 (HLA B51) 양성, 반복적인 구강궤양이 있었으나 자극항진성검사는 음성이었으며 피부 병변이나 성기궤양은 없어 베체트병 진단 기준에는 부합하지 않는다고 판단되어 외래 경과 관찰하기로 하였다. 치료 2주째에 유리체염과 망막혈관염 소견이 호전되어 스테로이드 점안액(1% prednisolone acetate, Predforte[®], Allergan, Irvine, CA, USA)은 하루 4회 양안에 점안하도록 하였고 경구 스테로이드는 20 mg, 10 mg, 5 mg으로 순차적으로 감량하여 일주일씩 유지한 후 복용 중단하였다.

이후 4개월간 양안 포도막염이 수차례 재발하였으며 경구 스테로이드 복용, 스테로이드 점안액 사용만으로는 염증이

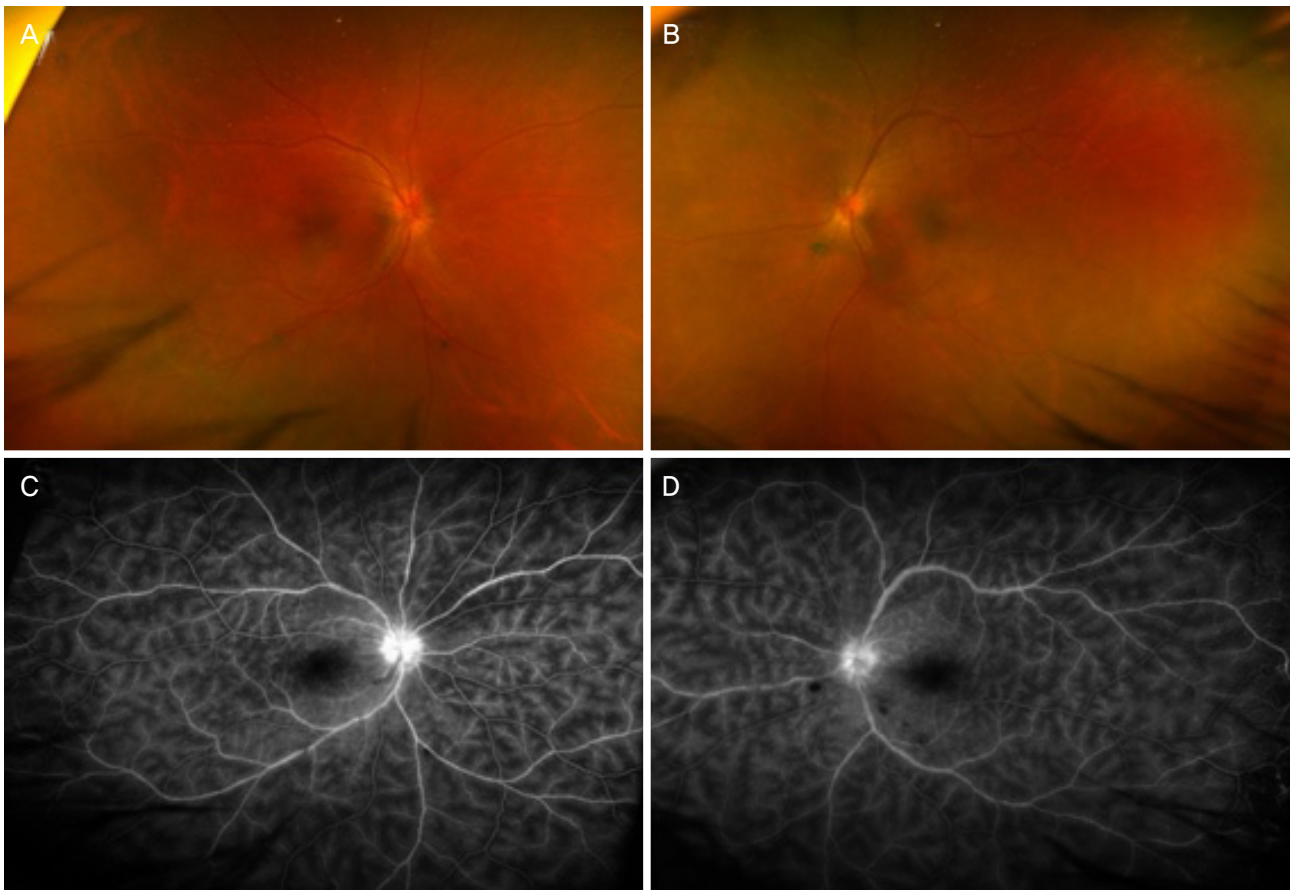


Figure 1. Ultra-widefield fundus photographs and ultra-widefield fluorescein angiographic images in both eyes. Fundus photographs shows vitreous opacity (A, B). Fluorescein angiographic images shows diffuse perivascular leakage (fern-like appearance) (C, D).

조절되지 않아 우안에 2회의 테논낭하 트리암시놀론주입술, 1회의 유리체강내 텍사메타손삽입술(Ozurdex®, Allergan) 좌안에 3회의 테논낭하 트리암시놀론주입술, 1회의 유리체강내 텍사메타손삽입술을 시행받았다. 치료 4개월째 내원 시 환자의 안면에 여드름모양 발진이 있었으며 문진 결과 이전에도 간헐적으로 비슷한 양상의 발진이 있었다고 하였다. 베체트병 진단에 부합하는 것으로 판단하여 류마티스 내과에 재의뢰하였고 반복적인 구강궤양, 여드름모양의 가성모낭염, 포도막염 양상으로 베체트병으로 진단되었다. 경구 스테로이드 복용만으로 염증이 조절되지 않아 면역억제제를 사용하기로 하였고 azathioprine 75 mg, cyclosporine 50 mg 복용을 시작하였다.

치료 8개월째 azathioprine 75 mg, cyclosporine 50 mg 복용 유지, 경구 스테로이드는 복용하지 않는 상태로 양안 포도막염 재발 없이 3개월간 유지되었다. 우안 교정시력 1.0, 좌안 교정시력 0.15로 측정되었으며 좌안의 백내장 소견으로 좌안의 수정체유화술 및 인공수정체후방삽입술을 시행하였다. 수술 후 1일째 좌안의 교정시력이 0.4로 측정되었고 세극등검사에서 경도의 전방 염증 소견이 있었다. 수술 후 일주일째 내원하였을 때, 환자는 좌안의 교정시력은 0.04로 저하되어 있었고, 세극등검사에서 좌안의 경도 전방 염증과 유리체 세포 +3의 유리체염 및 황반 주변부 망막

출혈, 시신경 부종이 보였다. 빛간섭단층촬영에서 심한 황반부종이 관찰되었으며 형광안저혈관조영술에서 광범위한 망막혈관염 소견이 보였다(Fig. 2). 우안의 세극등검사 및 안저검사 소견에서는 특이사항이 없었다. 이전 치료 과정을 고려할 때 경구 스테로이드에 염증 조절 반응이 좋지 않아 좌안에 유리체강내 텍사메타손삽입술을 시행하고 경과 관찰하였다. 1개월이 지난 후 좌안 교정시력은 0.8로 측정되었으며 세극등검사에서 전방 염증이 없었고 유리체 세포 미량(trace)으로 포도막염의 호전이 보였고, 안저검사에서 황반부종 및 망막혈관염의 호전이 관찰되었으며 그 외 안압상승 등의 수술로 인한 안과적 합병증은 관찰되지 않았다(Fig. 3).

유리체강내 텍사메타손삽입술 시행 2달 후 양안 포도막염이 재발하여 양안 유리체세포가 +3으로 관찰되었다. 면역억제제 용량을 증량하여 azathioprine 100 mg, cyclosporine 50 mg의 경구 면역억제제를 복용하였고 경구 스테로이드는 복용하지 않았으며, 양안의 유리체강내 텍사메타손삽입술 시행하였고 1달 후 호전되었다. 그 후 양안 포도막염 재발 없이 3개월간 유지되었고 azathioprine 100 mg, cyclosporine 50 mg 복용을 유지하고 경구 스테로이드는 복용하지 않았다. 우안의 교정시력 0.2으로 측정되었고 우안의 백내장 진행 소견으로 우안의 수정체유화술 및 인공수정체후

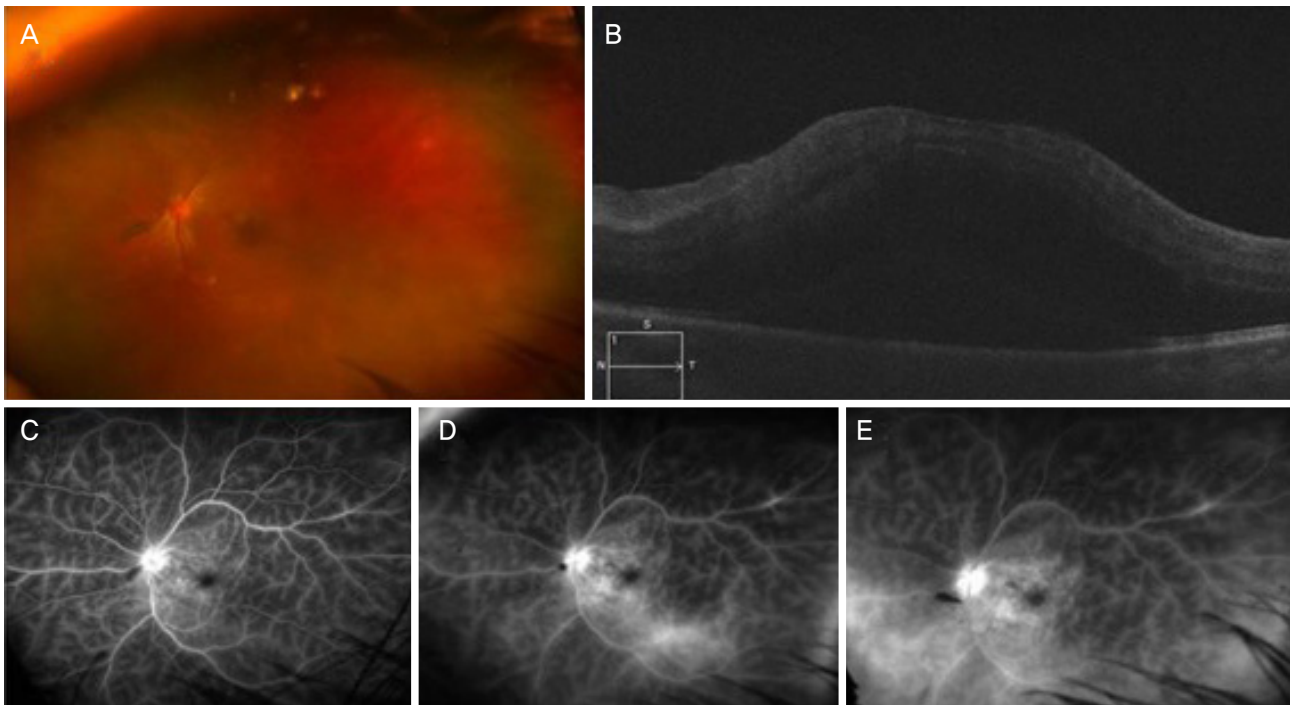


Figure 2. Ultra-widefield fundus photograph, optical coherence tomographic image and ultra-widefield fluorescein angiographic images in left eyes. (A) Fundus photograph shows vitreous opacity and retinal hemorrhage at parafovea and ischemia in the left eye. (B) Optical coherence tomography shows severe macular edema in the left eye. (C-E) Fluorescein angiograph shows diffuse perivascular leakage.

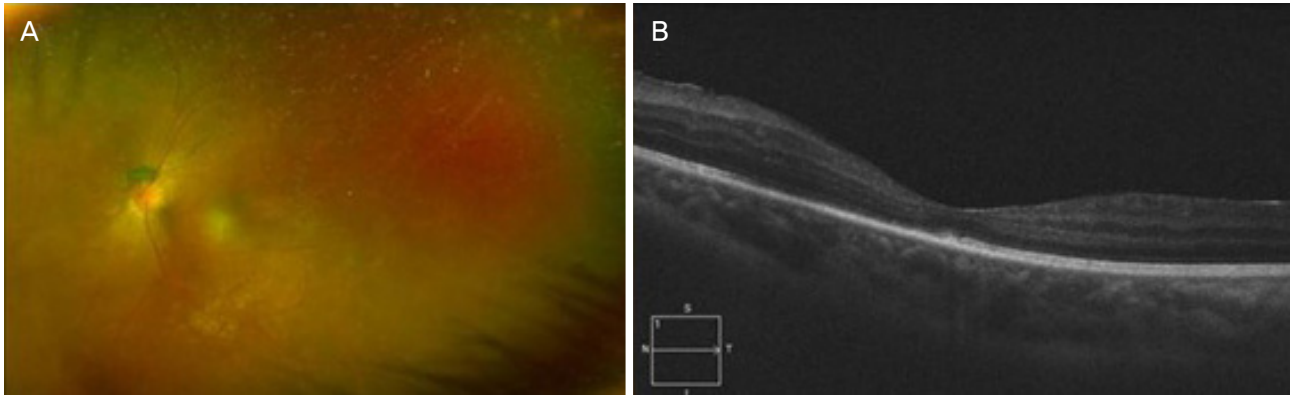


Figure 3. Ultra-widefield fundus photograph, optical coherence tomographic image in left eye. Fundus photograph (A) and optical coherence tomography (B) of the left eye show improved macular edema and vasculitis after 1 month after intravitreal dexamethasone implantation.

방삽입술을 시행하였으며 우안의 백내장수술 3개월 후 우안 교정시력 0.6, 좌안 교정시력 0.8로 측정되었고 안압상승, 수술 후 염증의 재발 등 합병증은 발생하지 않았다.

고 찰

베체트병은 재발성 구강 궤양이 있는 환자에서 성기 궤양, 안과적 병변, 피부 병변, 자극항진성검사 양성 소견 중 적어도 2가지를 만족할 때 진단 내릴 수 있다.¹ 베체트병의 안과적 양상으로 포도막염이 가장 흔하며 후포도막염이 30-53%, 전체포도막염이 44-80%에서 나타나는 것으로 알려져 있다.⁵ 또한 베체트병은 망막, 맥락막, 시신경 유두의 진행성 허혈을 일으켜 황반부종, 망막정맥폐쇄, 유리체망막출혈, 이차성 녹내장, 망막박리 등의 합병증을 유발할 수 있다.⁵

전신적 스테로이드와 면역억제제의 사용은 베체트 중간 포도막염, 후포도막염의 표준치료로 알려져 있다.⁶ 전신 스테로이드는 널리 사용되는 약제이나 망막혈관의 병변이 있을 때에는 염증 조절이 충분치 않다고 알려져 있다.⁶ 따라서 베체트병 환자에서 후안부 합병증이 동반되었을 때에는 스테로이드의 단독 치료로는 부족하며 면역억제제가 함께 사용되어야 한다.⁶ Azathioprine과 cyclosporine은 시력의 보존과 포도막염의 재발을 줄이는 효과가 있는 것으로 무작위 대조군 연구에서 그 효과가 인정된 면역억제제며^{7,8} 본 증례에서도 재발하는 포도막염의 치료를 위하여 azathioprine과 cyclosporine을 환자에게 복용하게 하였다.

스테로이드의 유리체내 주입술은 단안의 심한 전체포도막염에서 전신 스테로이드 사용이 효과적이지 않을 때 유용하게 사용할 수 있다.^{6,9} 최근의 보고에 따르면 포도막염에서 텍사메타손삽입물 유리체내주입술이 효과적인 것으

로 알려져 있는데, 17안의 후포도막염 치료에 1회의 텍사메타손삽입물 유리체내주입술로 최대교정시력의 유의한 상승과 황반부종, 유리체염의 유의한 호전을 보였고 6개월간 효과적으로 유지되었다는 연구도 있다.⁹ 본 증례에서도 백내장수술 후 발생한 황반부종 및 망막혈관염이 유리체강내 텍사메타손삽입술로 빠른 회복을 보였는데, 첫 2개월간 유리체내에서 약물 농도가 고농도로 유지되다가 3-7개월간 그보다 낮은 농도로 약물 농도가 유지되는 특징이 병변의 빠른 호전과 재발 없이 유지되는 데에 영향줬을 것으로 생각된다.⁹

베체트병에서 포도막염으로 인한 이차성 백내장은 환자들의 시력저하를 일으키는 흔한 원인이며 이러한 환자들에서 성공적인 백내장수술이 시력 회복에 필수적이다. 백내장수술 후 시력예후에 영향주는 원인으로 알려진 요소로 반복적인 망막 혈관염에서 오는 심한 후안부 합병증, 특히 시신경 위축, 망막의 위축, 황반부종이 있다.^{4,10}

따라서 만성적인 포도막염을 앓고 있는 환자들에서 백내장수술을 할 때 적어도 3개월 동안 재발이 없는 상태에서 수술 전과 수술 후에 면역억제제 사용을 유지하면서 수술 2일 전부터 전신 스테로이드 약제의 사용, 그 후 4-6주의 스테로이드 감량기간을 가지는 것이 백내장수술 후 포도막염의 재발을 낮추는 방법으로 제시되고 있다.^{4,11} 또한 난치성 포도막염이 있는 베체트병 환자에서 infliximab 정주를 수술 전후로 유지한 경우, 수술 전 전신 스테로이드의 사용 없이도 백내장수술의 안전성과 시력 예후를 더 향상시킬 수 있었다는 연구도 있다.¹²

베체트병 환자에서 백내장수술 후 포도막염이 발생하는 기전은 아직 명확하지 않으나 인공수정체의 지지부가 섬모체 고랑에 있을 때 자극의 요소로 작용하여 만성적인 포도막염을 일으킬 수 있는 것으로 여겨진다.⁴ 근래 백내장수술

의 대부분의 경우와 같이 인공수정체를 수정체낭 내에 위치하게 하면 염증 반응을 줄일 수 있는 것으로 생각된다.^{4,11,13} 베체트병에서 성별이 남자인 경우 포도막염이 더 빈번하게 발생하는 것으로 알려져 있는데, 백내장수술 후 예후의 예측 인자를 알아보는 연구에서도 백내장수술 후 6개월 이상 경과 관찰한 결과 남자 환자에서 수술 후 염증의 재발률이 높았다고 보고하였다.^{10,14,15} 본 증례에서는 3개월간 염증의 재발이 없이 유지되었으나 이전에 재발이 잦았던 환자인 점, 성별이 남자인 점 등이 백내장수술 후 포도막염의 재발에 영향을 주었을 것으로 생각된다.

본 증례에서는 3개월간 포도막염의 재발이 없었으며 경구 azathioprine 75 mg, cyclosporine 50 mg 복용을 지속하는 상황에서 백내장수술을 시행하였으나 수술 후 단시간 내 포도막염이 발생하였다. 심한 시력저하를 동반한 황반부종 및 망막혈관염 소견을 보였으며, 이전의 포도막염 치료 경과를 고려할 때 경구 스테로이드로 잘 조절이 되지 않았기에, 즉각적인 유리체내 텍사메타손삽입물주입술을 실시하였으며 황반부종과 혈관염의 빠른 회복을 보였다.

베체트병 환자에서 백내장수술 후 발생한 황반부종과 망막혈관염으로 포도막염에 대해 텍사메타손삽입물로 치료한 이전 보고가 없어 이에 1예를 보고하고자 한다. 또한 베체트병 환자에서 백내장수술 후 시력저하가 있을 때 전방염증이 심하지 않더라도 망막혈관염, 황반부종 등의 후안부 합병증 발생의 가능성을 생각하는 것이 반드시 필요하다고 생각된다.

REFERENCES

- 1) International Study Group for Behcet's Disease. Criteria for diagnosis of Behcet's disease. *Lancet* 1990;335:1078-80.
- 2) Bang D, Lee JH, Lee ES, et al. Epidemiologic and clinical survey of Behcet's disease in Korea: the first multicenter study. *J Korean Med Sci* 2001;16:615-8.
- 3) Park JW, Koh HJ, Kim HB. Behcet's disease in Korean. *J Korean Ophthalmol Soc* 2002;43:67-74.
- 4) Kadayifçılar S, Gedik S, Eldem B, Irkeç M. Cataract surgery in patients with Behçet's disease. *J Cataract Refract Surg* 2002;28:316-20.
- 5) Khairallah M, Accorinti M, Muccioli C, et al. Epidemiology of Behçet disease. *Ocul Immunol Inflamm* 2012;20:324-35.
- 6) Zierhut M, Abu El-Asrar AM, Bodaghi B, Tugal-Tutkun I. Therapy of ocular Behçet disease. *Ocul Immunol Inflamm* 2014;22:64-76.
- 7) Yazici H, Pazarli H, Barnes CG, et al. A controlled trial of azathioprine in Behcet's syndrome. *N Engl J Med* 1990;322:281-5.
- 8) Masuda K, Nakajima A, Urayama A, et al. Double-masked trial of cyclosporin versus colchicine and long-term open study of cyclosporin in Behcet's disease. *Lancet* 1989;1:1093-6.
- 9) Coşkun E, Celemler P, Kimyon G, et al. Intravitreal dexamethasone implant for treatment of refractory Behçet posterior uveitis: one-year follow-up results. *Ocul Immunol Inflamm* 2015;23:437-43.
- 10) Hu K, Lei B, Kijlstra A, et al. Male sex, erythema nodosum, and electroretinography as predictors of visual prognosis after cataract surgery in patients with Behçet disease. *J Cataract Refract Surg* 2012;38:1382-8.
- 11) Ram J, Gupta A, Kumar S, et al. Phacoemulsification with intraocular lens implantation in patients with uveitis. *J Cataract Refract Surg* 2010;36:1283-8.
- 12) Alfawaz A, Alrashidi S, Kalantan H, et al. Cataract surgery under systemic infliximab therapy in patients with refractory uveitis associated with Behcet disease. *Ann Saudi Med* 2014;34:328-33.
- 13) Süllü Y, Oge I, Erkan D. The results of cataract extraction and intraocular lens implantation in patients with Behcet's disease. *Acta Ophthalmol Scand* 2000;78:680-3.
- 14) Bang DS, Oh SH, Lee KH, et al. Influence of sex on patients with Behcet's disease in Korea. *J Korean Med Sci* 2003;18:231-5.
- 15) Tugal-Tutkun I, Onal S, Altan-Yaycioglu R, et al. Uveitis in Behcet disease: an analysis of 880 patients. *Am J Ophthalmol* 2004;138:373-80.

= 국문초록 =

베체트병에서 백내장수술 후 발생한 황반부종 및 혈관염을 덱사메타손삽입물로 치료한 1예

목적: 베체트병 환자에서 백내장수술 후 발생한 황반부종 및 망막혈관염을 유리체강내 덱사메타손삽입술로 치료한 1예를 보고하고자 하였다.

증례요약: 베체트병으로 진단받고 양안 포도막염 재발 없이 3개월간 유지되던 26세 남자가 좌안의 백내장으로 수정체유화술 및 인공 수정체후방삽입술을 시행받았다. 술 전 좌안 교정시력이 0.15였으며, 술 후 1일째 경도의 전방염증, 교정시력이 0.4로 확인되었다. 술 후 1주일 때 좌안 시력저하로 내원하였으며, 교정시력 0.04, 경도의 전방염증과 유리체염 소견이 보였다. 빛간섭단층촬영에서 황반 부종이 관찰되었으며, 형광안저혈관조영술에서 황반부 및 주변부에 혈관염 소견이 관찰되었다. 유리체강내 덱사메타손주입술을 시행 하고 1개월째 황반부종과 망막혈관염이 호전되었으며 교정시력이 0.8로 회복되었다.

결론: 베체트병 환자에서 백내장수술 후 발생한 망막혈관염 및 황반부종을 유리체강내 덱사메타손삽입술로 효과적으로 치료할 수 있었다.

〈대한안과학회지 2019;60(2):195-200〉

이지영 / Ji Young Lee

가톨릭대학교 의과대학 부천성모병원 안과학교실
Department of Ophthalmology,
Bucheon St. Mary's Hospital, College of Medicine,
The Catholic University of Korea

