

= 증례보고 =

심한 기계성 위눈꺼풀 처짐을 유발한 눈물샘 눈꺼풀염의 거대 다형성 샘종 1예

정병주 · 조양경 · 나태윤

가톨릭대학교 의과대학 성빈센트병원 안과학교실

목적: 심한 기계성 위눈꺼풀처짐을 유발하여 심각한 시야 장애를 일으킨 눈물샘 눈꺼풀염에 생긴 거대한 다형성 샘종의 예를 경험하고 종양을 성공적으로 제거하였기에 이를 국내 최초로 보고하고자 한다.

증례요약: 82세 남자 환자가 약 10여 년 전부터 서서히 커지기 시작하여 심한 위눈꺼풀처짐을 일으킨 좌안 위눈꺼풀의 거대 종괴를 주소로 내원하였다. 수술 전 검사한 안와전산화단층촬영에서 혈관종으로 의심되는 2.3×2.0 cm 크기의 커다란 종괴가 관찰되었으며, 쌍꺼풀선 피부절개를 통하여 종괴를 완전 적출하였다. 술 후 종괴의 병리조직검사결과에서는 눈물샘의 다형성 샘종이 확인되었다. 술 후 위눈꺼풀처짐은 완전히 회복되었으며, 6개월까지의 경과 관찰 중 눈물 분비의 이상이나 종양의 재발 소견은 나타나지 않고 있다.

결론: 눈물샘 눈꺼풀염에 생긴 거대한 다형성 샘종을 쌍꺼풀선 피부절개를 통하여 성공적으로 제거하고 심한 기계성 위눈꺼풀처짐을 교정할 수 있었기에 보고하는 바이다.

〈대한안과학회지 2011;52(2):241-245〉

눈물샘의 종양은 전체 안와 종양 중 차지하는 빈도가 10% 미만 정도로 드문 편인데,¹ 이 중 약 반은 상피성 기원 종양이고 나머지 반은 림프증식성 종양인 것으로 알려져 있다. 상피성 기원 종양 중에서는 약 반이 양성 종양이고, 나머지 반이 악성 종양인데, 양성 종양 중 가장 흔한 것이 다형성 샘종이며, 상피성 기원 종양의 반을 차지한다.² 눈물샘의 다형성 샘종은 대부분 눈물샘 안와염에서 발생하며, 반면 그 빈도가 매우 드물지만 종양이 눈물샘의 눈꺼풀염에서 발생할 경우 결막 혹은 눈꺼풀 쪽으로 성장하여 대개 안구돌출 등의 증상 없이 눈꺼풀 부종이나 종괴 또는 결막 충혈이나 부종 등의 증상을 나타낸다.^{3,4} 저자들은 심한 기계성 위눈꺼풀 처짐을 유발하여 심각한 시야 장애를 일으킨 눈물샘 눈꺼풀염에 생긴 거대한 다형성 샘종의 예를 경험하고 종양을 성공적으로 제거하였기에 이를 국내 최초로 보고하고자 한다.

증례보고

82세 남자 환자가 약 10여 년 전부터 서서히 커지기 시

작한 좌안 위눈꺼풀의 거대 종괴로 인한 심한 위눈꺼풀 처짐을 주소로 내원하였다. 내원 당시 환자의 눈꺼풀각막반사 거리는 우안은 3 mm, 좌안은 -2 mm였고, 심한 기계성 위눈꺼풀처짐으로 좌안 시야는 모두 가려져 있었으며, 처진 눈꺼풀을 들어 올리고 나서야 시력을 측정할 수 있었다. 좌측 위눈꺼풀에 2.0×2.0 cm 크기의 둥근 종괴가 위눈꺼풀 가쪽에 있었고, 피부 쪽으로 심하게 융기되어 있었다. 약간의 유동성이 있는 중등도 경도의 둥근 종괴였으며, 압통이나 발적 등의 소견은 관찰되지 않았다. 환자의 시력과 안압, 안구운동 검사는 모두 정상이었으며, 전안부 및 안저 검사에서도 특이 소견은 없었다(Fig. 1).

수술 전 안와전산화단층촬영에서 안구의 상외측에서 약한 조영 증강과 경계가 명확한 2.3×2.0 cm 크기의 종양이 관찰되었으며, 혈관종으로 판독되었다(Fig. 2). 국소마취하에 쌍꺼풀선을 따라 중앙과 가쪽 눈꺼풀 피부에 절개를 가하자 안와사이막과 눈꺼풀올림근 널힘줄로 여겨지는, 종괴에 의해 늘어난 얇아진 조직이 나타났으며, 종괴의 눈꺼풀판 쪽 하단부에서 다시 한 번 절개를 가하자, 주변 안와 조직과 구분이 잘 되는 피막에 싸인 종괴가 드러났다(Fig. 3A). 조심스럽게 박리를 진행하여 종괴를 주변조직과 완전히 분리한 후, 피막의 손상 없이 완전 적출하였으며, 절개한 가쪽 눈꺼풀올림근 널힘줄과 눈꺼풀 피부는 종괴 제거 후 늘어진 부분이 많이 있어 반대쪽 눈의 위눈꺼풀테 높이와 대칭이 되도록 조정을 하면서 절제하고 아래쪽의 위눈꺼풀

■ 접수 일: 2010년 6월 10일 ■ 심사통과일: 2010년 9월 18일
■ 게재허가일: 2010년 11월 25일

■ 책임저자: 나 태 윤

경기도 수원시 팔달구 지동 93-6
가톨릭대학교 성빈센트병원 안과
Tel: 031-249-7340, Fax: 031-251-6225
E-mail: laty@catholic.ac.kr

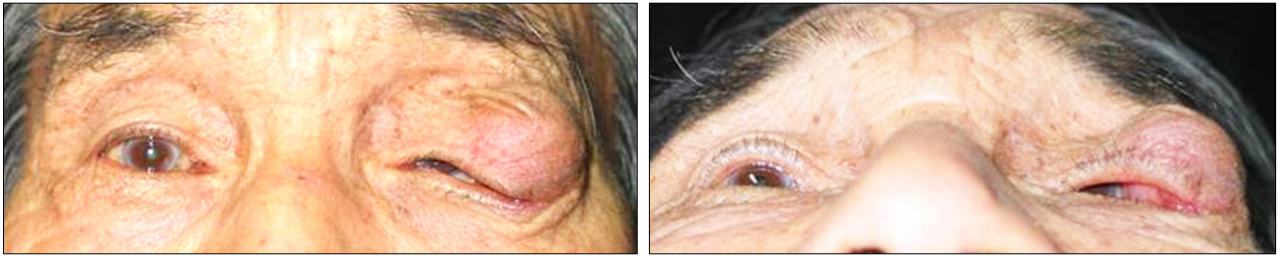


Figure 1. Photographs show a huge protruding upper lid mass causing severe mechanical ptosis.

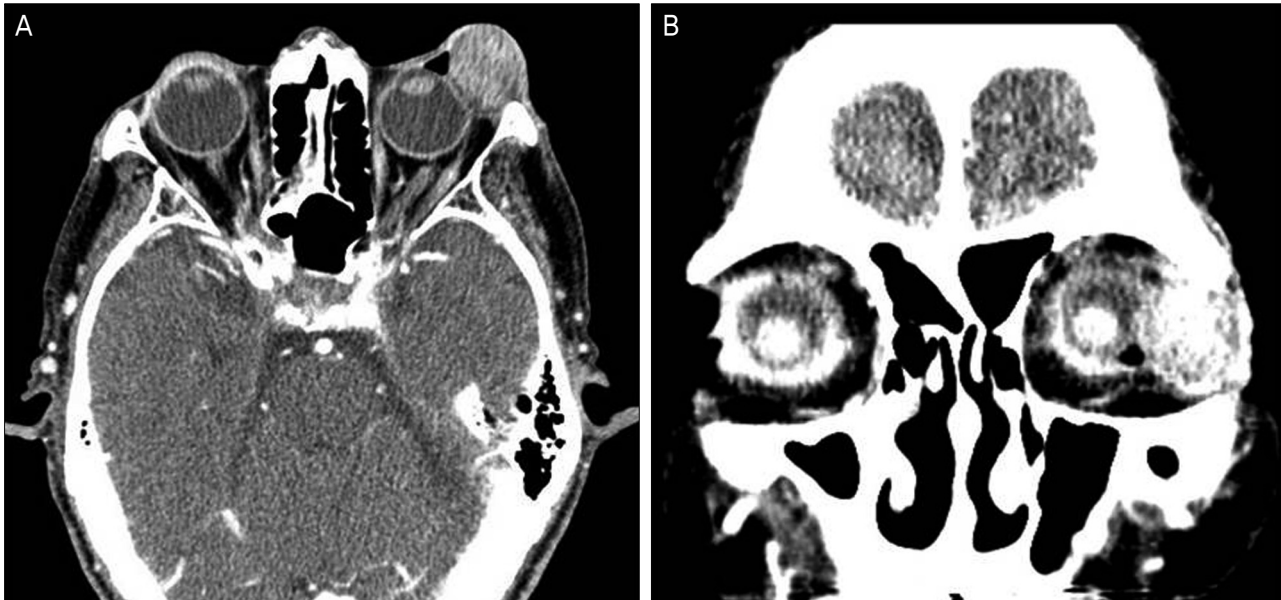


Figure 2. (A) Orbit CT shows a 2.3×2.0 cm sized, round, demarcated huge mass protruding to the upper lid. (B) The mass is contrast enhanced and at first, radiological impression was hemangioma.

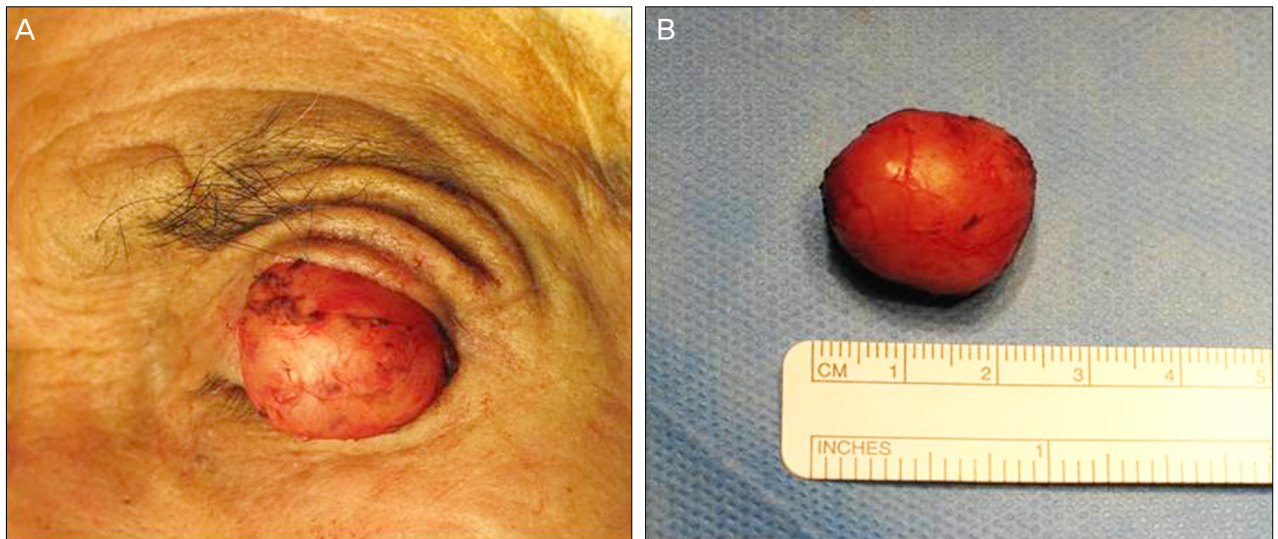


Figure 3. (A) Through upper lid crease incision and dissection, almost totally exposed mass was seen. (B) The removed mass was well encapsulated and round firm shaped and $2.3 \times 2.0 \times 2.0$ cm in size.

판과 쌍꺼풀선 절개 아래쪽 피부에 각각 봉합하였다. 적출된 종괴는 $2.3 \times 2.0 \times 2.0$ cm의 크기로 회백색의 피막에 잘

둘러싸인 둥근 형태를 취하고 있었다(Fig. 3B). 술 후 종괴의 병리조직검사 결과 관 또는 샘 모양의 구조를 만드는 원

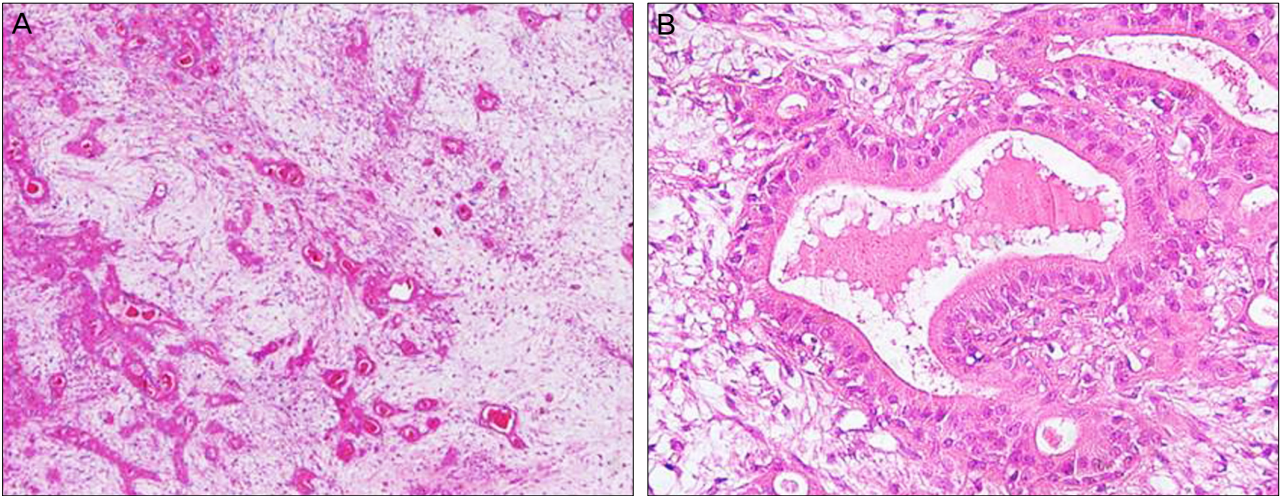


Figure 4. (A) Histopathologic finding shows numerous tubular or glandular structures embedded in myxoid stroma (hematoxylin-eosin, $\times 40$). (B) The tubules are lined by two layers of cells. The inner layer has columnar epithelial cells with eosinophilic cytoplasm, and the outer layer is made up of myoepithelial cells. Scattered spindle cells in myxoid stroma are also seen (hematoxylin-eosin, $\times 400$).



Figure 5. Photograph of the patient at postoperative 1 month shows completely removed upper lid mass and resolved preoperative severe mechanical ptosis.

주상피세포와 점액 성분의 바탕질로 이루어진 다형성 샘종의 전형적인 소견이 나왔다(Fig. 4). 술 후 위눈꺼풀처짐은 완전히 회복되어 좌안 눈꺼풀각막반사거리는 3 mm로 양안이 동일하게 되고 시야 장애는 없어졌으며, 술 후 6개월 간의 경과 관찰 중 눈물 분비의 이상이나 종양의 재발 소견은 없었다(Fig. 5).

고 찰

다형성 샘종은 주로 침샘에서 많이 발생하는 양성 종양으로 90% 이상은 귀밑 침샘에서 생기나 다른 부위의 침샘이나 구개, 기관지, 눈꺼풀, 눈물샘 등 샘 조직이 있는 부위라면 두부 또는 경부의 어디에서나 발생할 수 있다. 그러나 전체 다형성 샘종 중 매우 적은 약 0.5~1% 정도만이 눈물샘에서 발생하며, 전체 눈물샘 병변 중에서는 10% 정도를 차지한다.⁵ 눈물샘의 다형성 샘종은 눈물샘 조직이 있는 곳이라면 어디에서든 발생할 수 있어 이소성 눈물샘(ectopic lacrimal gland)이나 부눈물샘에서 발생한 예도 보고된 바

있다.⁶⁻⁹ 눈물샘의 다형성 샘종은 주로 30~40대에서 호발하며, 여자보다 남자에서 조금 더 높은 발생 빈도를 보이는 것으로 알려져 있는데,^{10,11} 대부분 안와엽에서 발생하며 눈꺼풀염에서 발생하는 경우는 매우 드물다.^{3,4,12} 임상적으로 안와엽에서 생긴 다형성 샘종은 보통 수개월에서 1년 이상의 기간에 걸쳐 위눈꺼풀의 상외측에서 별다른 증상 없이 서서히 커지는 종괴로 만져지면서 발견된다. 이 때 눈물샘의 종양이 어느 정도 커질 경우 일반적인 안와 종양에서와 마찬가지로 안구돌출과 전위 증상을 일으킬 수 있는데, 보통 안구 뒤편으로 자라 들어가 안구돌출과 안구의 하내측 편위를 유발하며,¹⁰ 때로 눈물샘오목을 확장시키기도 한다.¹¹ 반면, 그 발생 빈도가 드물지만 종양이 눈꺼풀염에서 발생하는 경우에는 안구 앞쪽으로 자라면서 초기에 눈꺼풀 혹은 결막 부종 등의 증상을 일으키고 빨리 발견되기도 하는데,^{12,13} 이 때 안구돌출과 편위, 뼈 조직의 변형 등은 생기지 않는다.^{3,4,12} 한편 종양의 발생부위와 관계없이 종괴의 급속한 성장은 악성 변화를 암시한다.^{14,15} 본 증례에서도 눈물샘 눈꺼풀염에 생긴 종양이 오랜 기간에 걸쳐 눈꺼풀 쪽으로 자라 매우 심한 위눈꺼풀처짐을 일으켰는데, 아직까지 눈물샘 눈꺼풀염에 생긴 거대한 크기의 다형성 샘종이 외국에서는 보고가 있었지만, 국내에 보고는 없었다. 눈꺼풀염의 다형성 샘종은 임상적으로 눈꺼풀의 림프종, 염증성 가성종양, 유피낭종, 눈물샘관 낭종, 산립종 등과 혼동되기 쉬우므로 이들과의 감별이 필요하다.^{13,16-18} 실제로 이 환자의 경우 안와전산화단층촬영에서 눈꺼풀 쪽에 위치한 종양의 거대한 크기와 조영 증강 소견 등으로 인하여 처음에는 혈관종으로 잘못 판독되기도 하였다.

다형성 샘종은 잠재적으로 악성 변화의 가능성이 있으므

로 다형성 샘종이 의심되는 경우 피막을 손상시키지 않고 종양을 완전히 적출해 내는 것이 중요하다. 불완전한 종양의 제거와 절개 생검은 종양 세포를 주위조직으로 퍼지게 하고 재발과 악성화의 빈도를 높일 수 있으므로 금해야 한다.^{14,15} 종양을 제거하는 방법은 종양의 위치에 따라 다른데, 종양이 안와엽에서 발생하여 안와 내측 깊숙이 위치한 경우에는 외측 안와절개술과 두개절개술 등의 방법으로 접근할 수 있고,^{19,20} 종양이 눈꺼풀엽에서 발생하여 안와 앞쪽이나 눈꺼풀 쪽에 위치한 경우에는 쌍꺼풀선 절개 혹은 결막경유 접근법을 이용할 수 있다.^{3,4,12}

저자들은 눈물샘 눈꺼풀엽에 생긴 거대한 다형성 샘종을 쌍꺼풀선 피부절개를 통하여 성공적으로 제거하고 심한 기계성 위눈꺼풀처짐을 교정할 수 있었기에 보고하는 바이다.

참고문헌

- 1) Shields JA, Shields CL, Scartozzi R. Survey of 1264 patients with orbital tumors and simulating lesions: The 2002 Montgomery Lecture, part 1. *Ophthalmology* 2004;111:997-1008.
- 2) Albert DM, Jakobiec FA. Principle and practice of ophthalmology, 1st ed. Philadelphia: W.B. Saunder company, 1994;1952-6.
- 3) Murphy MB, Rodrigues MM. Benign mixed tumor of the (palpebral) lacrimal gland presenting as a nodular eyelid lesion. *Am J Ophthalmol* 1974;77:108-11.
- 4) Auran J, Jakobiec FA, Krebs W. Benign mixed tumor of the palpebral lobe of the lacrimal gland. Clinical diagnosis and appropriate surgical management. *Ophthalmology* 1988;95:90-9.
- 5) Shields CL, Shields JA, Eagle RC, Rathmell JP. Clinicopathologic review of 142 cases of lacrimal gland lesions. *Ophthalmology* 1989;96:431-5.
- 6) Mindlin A, Lamberts D, Barsky D. Mixed lacrimal gland tumor arising from ectopic lacrimal gland tissue in the orbit. *J Pediatr Ophthalmol* 1977;14:44-7.
- 7) Mueller EC, Borit A. Aberrant lacrimal gland and pleomorphic adenoma within the muscle cone. *Ann Ophthalmol* 1979;11:661-3.
- 8) Kim NJ, Choung HK, Khwang SI. Benign mixed tumor arising from an accessory lacrimal gland in the inferior palpebral conjunctiva. *J Korean Ophthalmol Soc* 2006;47:1673-7.
- 9) Shin KS, Kim YD, Lee HK. A case of benign mixed tumor presenting as a nodular eyelid lesion. *J Korean Ophthalmol Soc* 1991;32:101-5.
- 10) Wright JE, Stewart WB, Krohel GB. Clinical presentation and management of lacrimal gland tumours. *Br J Ophthalmol* 1979;63:600-6.
- 11) Ni C, Cheng SC, Dryja TP, Cheng TY. Lacrimal gland tumors: a clinicopathological analysis of 160 cases. *Int Ophthalmol Clin* 1982;22:99-120.
- 12) Parks SL, Glover AT. Benign mixed tumors arising in the palpebral lobe of the lacrimal gland. *Ophthalmology* 1990;97:526-30.
- 13) Rose GE, Wright JE. Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland. *Br J Ophthalmol* 1992;76:395-400.
- 14) Shields JA, Shields CL. Malignant transformation of presumed pleomorphic adenoma of lacrimal gland after 60 years. *Arch Ophthalmol* 1987;105:1403-5.
- 15) Jung CK, Kim SM, Lee JY, Chung SK. Malignant change of pleomorphic adenoma. *J Korean Ophthalmol Soc* 1997;38:2251.
- 16) Jakobiec FA, Bonanno PA, Sigelman J. Conjunctival adnexal cysts and dermoids. *Arch Ophthalmol* 1978;96:1404-9.
- 17) Hornblass A, Herschorn BJ. Lacrimal gland duct cysts. *Ophthalmic Surg* 1985;16:301-6.
- 18) Ramlee N, Ramli N, Tajudin LS. Pleomorphic adenoma in the palpebral lobe of the lacrimal gland misdiagnosed as chalazion. *Orbit* 2007;26:137-9.
- 19) Park BG, Cho KR, Chung YS. A case of pleomorphic adenoma (mixed tumor) in lacrimal gland. *J Korean Ophthalmol Soc* 1981;22:291-4.
- 20) Kim HK, Kim HS, Cho NC. Transcranial approach for removal of pleomorphic adenoma of lacrimal gland. *J Korean Ophthalmol Soc* 1998;39:763-70.

=ABSTRACT=

A Giant Pleomorphic Adenoma of Lacrimal Gland Involving the Palpebral Lobe Causing Severe Mechanical Ptosis

Byung Ju Jung, MD, Yang Kyeong Cho, MD, PhD, Tae Yoon La, MD, PhD

Department of Ophthalmology, St. Vincent's Hospital, The Catholic University of Korea School of Medicine, Seoul, Korea

Purpose: To report a rare case of giant pleomorphic adenoma of the lacrimal gland involving the palpebral lobe causing severe mechanical ptosis and visual field defect, which was removed successfully.

Case Summary: An 82-year-old man visited our clinic with a large protruding mass on his left upper lid that had grown for approximately 10 years causing severe ptosis. Preoperative orbital CT showed a 2.3 × 2.0 cm sized large mass which was suspicious of hemangioma. The mass was completely excised through a lid crease incision. The histopathologic examination showed typical findings of pleomorphic adenoma. After the surgery, preoperative mechanical ptosis was completely resolved and during the 6 months of follow-up, there was no abnormality of tear secretion and evidence of tumor recurrence.

Conclusions: The authors experienced a rare case of giant pleomorphic adenoma of the lacrimal gland involving the palpebral lobe and resolved mechanical ptosis by complete removal of the tumor through a lid crease incision.

J Korean Ophthalmol Soc 2011;52(2):241-245

Key Words: Giant pleomorphic adenoma, Lacrimal gland palpebral lobe, Mechanical ptosis

Address reprint requests to **Tae Yoon La, MD, PhD**
Department of Ophthalmology, St. Vincent's Hospital
#93-6 Ji-dong, Paldal-gu, Suwon 442-723, Korea
Tel: 82-31-249-7340, Fax: 82-31-251-6225, E-mail: laty@catholic.ac.kr