

= 증례보고 =

안와의 원발성 결막 상피 낭종 1예

이찬희¹ · 성미선² · 김형균³ · 우경인¹ · 김윤덕¹

성균관대학교 의과대학 삼성서울병원 안과학교실¹, 인제대학교 의과대학 상계백병원 안과학교실²,
한림대학교 의과대학 강동성심병원 안과학교실³

목적: 원발성으로 발생한 결막상피 낭종은 매우 드문 양성 종양으로, 저자들은 국내에서 최초로 안와에 발생한 원발성 결막상피 낭종 1예를 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 60세 여자 환자가 약 2년 전부터 발생한 좌안 안구돌출을 주소로 내원하였다. 안과검사상 비측 안와의 앞쪽에 움직이는 종괴가 관찰되었다. 전산화단층촬영 및 자기공명영상에서 좌측 안와 내벽과 내직근 사이로 2.5 cm 가량의 타원형 낭성 종괴 소견을 보였다. 피부를 통하여 종괴에 대한 절제생검을 시행하였다. 종괴는 비교적 명확한 경계를 갖는 낭종이었으나, 내직근의 근막과 유착되어 있는 소견이 관찰되었다. 조직병리검사상 여러 층의 입방상피세포로 둘러 싸인 결막 상피 낭종 소견을 보였고, 술잔세포를 관찰할 수 있었다.

결론: 안와에 발생한 낭성 종양의 감별진단에서 드물지만 원발성 결막상피 낭종의 가능성을 고려해야 한다.

(대한안과학회지 2010;51(6):885-889)

안와의 유피 낭종(dermoid cyst)은 각질 중층 편평 상피(keratinized stratified squamous epithelium)로 둘러싸여 있고, 피부 부속기를 가지며, 비교적 흔하게 발생한다.¹ 안와의 결막유피종(conjunctival dermoid)은 결막상피와 같은 비각질 상피(nonkeratinized epithelium)로 둘러싸여 있고, 피부부속기를 가진다. 안와의 결막상피 낭종(conjunctival epithelial cyst)은 비각질 상피로 둘러싸여 있으며, 피부 부속기를 포함하지 않고, 드물게 나타난다. 이 중에서 뚜렷한 병인없이 원발성으로 발생한 결막상피 낭종은 매우 드문 것으로 알려져 있다.^{2,3} 저자들은 안와에서 발생한 원발성 결막 상피 낭종 1예를 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례보고

60세 여자가 약 2년 전부터 발생한 좌안 안구돌출을 주소로 내원하였다. 다른 전신질환의 과거력은 없었으며, 이전에 외상력이나 수술력은 없었다. 눈검사서 양안 교정시력은 1.0이었으며, 전안부와 안저검사서 이상소견은 발

견되지 않았다. 안구 운동은 정상이었고, 복시는 없었다. Hertel 안구돌출계검사에서 우안 12 mm, 좌안 14 mm (bar: 103 mm)로 좌안에 2 mm의 안구돌출이 관찰되었다. 좌측 안와의 내측에 무통성의 움직이는 종괴가 촉진되었다(Fig. 1).

전산화단층촬영에서 좌측 안와 내벽과 내직근 사이로 2.5×2.4×1.4 cm 크기의 타원형, 낭성 종괴 소견을 보였다. 종괴에 의한 안구의 가쪽 편위 및 안와 내벽의 재형성의 소견도 관찰되었다(Fig. 2). 자기공명영상에서 종괴는 T1 강조 영상에서 주위 뇌 회백질과 비슷한 정도의 신호강도를 보였고, T2 강조 영상에서 고신호강도를 보였다. 종괴는 내부가 균일하였고, 조영 증강이 되지 않았으며, 내직근과 연접하여 잘 구분되지 않는 양상이었다(Fig. 3).

전신마취하에 피부경유 앞쪽 안와절개술을 이용하여 좌

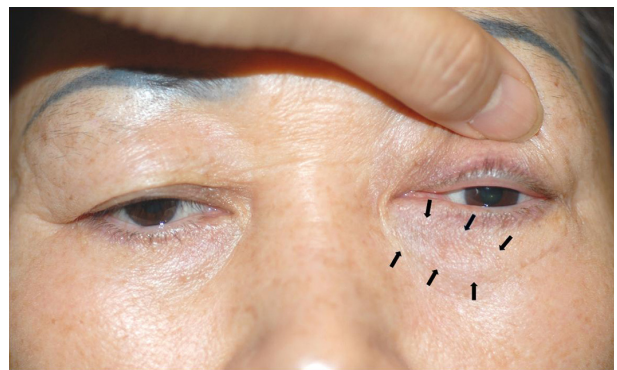


Figure 1. Clinical photograph showing movable mass in the inferonasal part of the left orbit (arrows).

■ 접수 일: 2009년 12월 14일 ■ 심사통과일: 2010년 4월 14일

■ 책임저자: 김 윤 덕

서울시 강남구 일원동 50
성균관대학교 삼성서울병원 안과
Tel: 02-3410-3561, Fax: 02-3410-0074
E-mail: ydkimoph@skku.edu

* 본 논문의 요지는 2008년 대한안과학회 제100회 추계학술대회에서 포스터로 발표되었음.

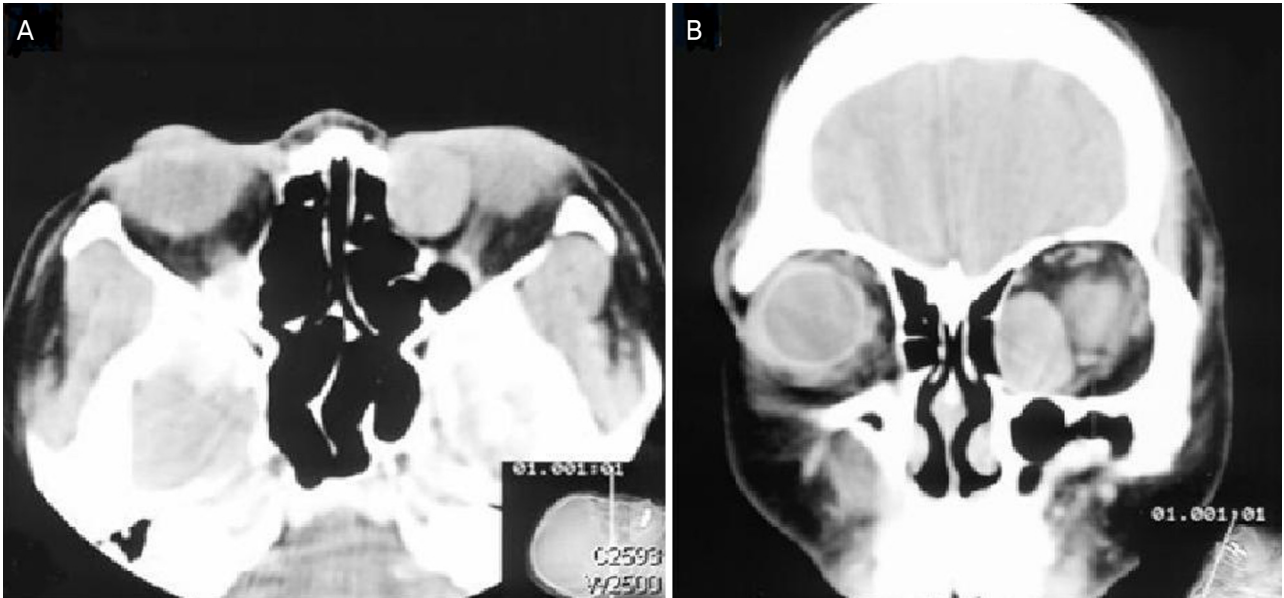


Figure 2. Axial (A) and coronal (B) CT images reveal a 2.5×2.4×1.4-cm, ovoid, cystic mass in the medial aspect of the left orbit. Lateral displacement of the left globe and pressure remodeling of the medial wall in the left orbit are shown.

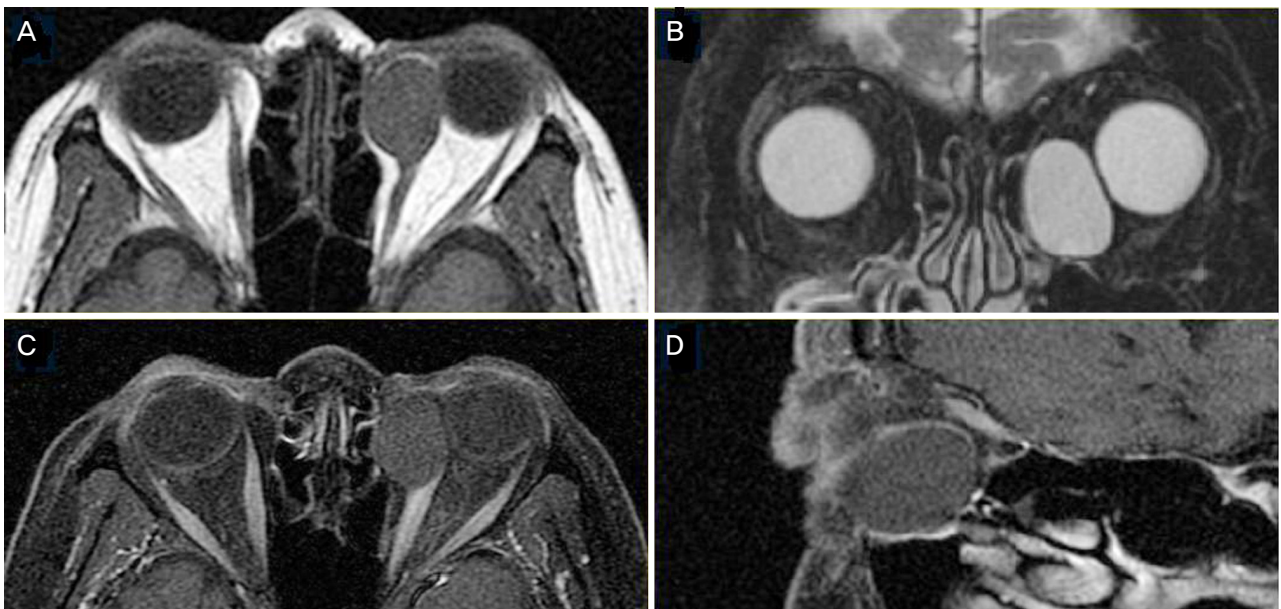


Figure 3. Axial (A) T1-weighted MR image and coronal (B) T2-weighted MR image demonstrate a well-circumscribed cystic lesion between the eyeball and medial wall in the left orbit. Axial (C) and sagittal (D) fat-suppressed contrast-enhanced T1-weighted MR images show the cystic mass which is adherent to medial rectus muscle without enhancement.

측 안와 종괴 절제생검술을 시행하였다. 종괴는 비교적 명확한 경계를 갖는 낭종이었으나, 내직근의 근막과 유착되어 있었다(Fig. 4).

조직병리검사에서 종괴는 hematoxylin & eosin 염색에서 2층 이상의 입방상피세포 혹은 원주상피세포로 둘러싸인 낭종의 소견을 보였고, 술잔세포가 관찰되었다. 피부부

속기는 포함되지 않았다(Fig. 5). 상피세포의 아래쪽으로 낭종을 불완전하게 둘러싸고 있는 평활근이 관찰되었고, 이것은 면역조직화학염색검사에서 smooth muscle actin에 양성소견을 보여 평활근에 해당하였다(Fig. 6). 이러한 소견을 바탕으로 평활근을 포함하는 결막상피 낭종으로 진단하였다.

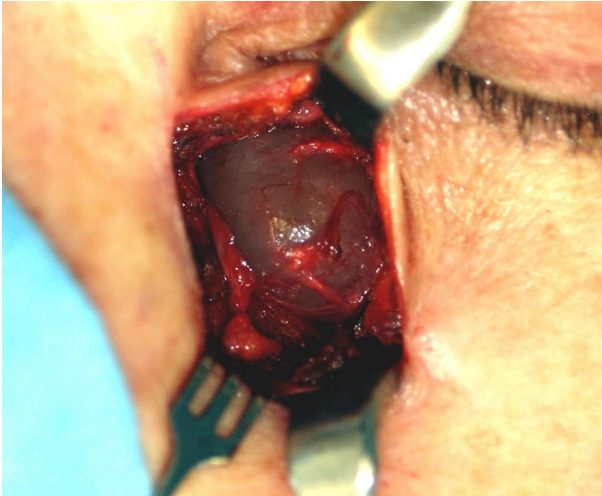


Figure 4. Intraoperative photograph showing a thin-walled, well-circumscribed cyst.

술 후 좌안 안구돌출이 감소하였으며, 내사시 및 좌측 주시 시 복시 소견 보였으나(Fig. 7), 18개월의 추적관찰 기간 동안 점차 호전되는 양상을 보였다.

고 찰

결막상피 낭종은 원발성과 이차성으로 구분될 수 있는데, 원발성의 병인은 배아형성기 동안 안와 연부조직 내로의 결막상피의 격리(sequestration)에 의한 것으로 알려져 있다.⁴ 일부에서 낭종이 상직근과 상안검거근의 공통 근막 내에서 관찰됨을 보고하였고, 이것은 상측 결막 구석의 형성 기간 동안 중배엽의 잘못된 분리(cleavage)에 의한 것으로 생각되며, 눈꺼풀처짐과 함께 상안검과 상측 결막 구석에

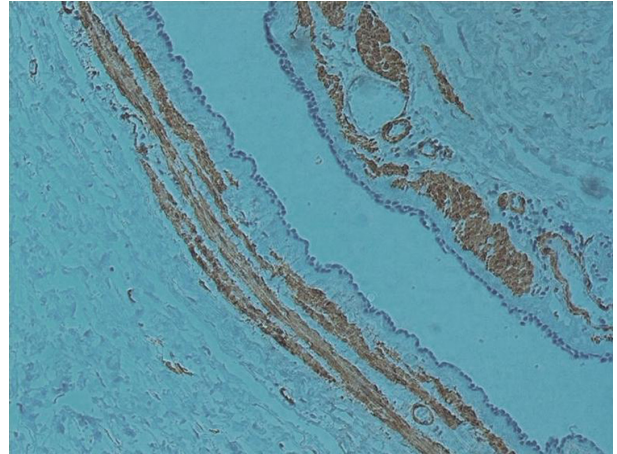


Figure 6. Immunohistochemistry for smooth muscle actin (SMA) demonstrated bundles of smooth muscle cells, surrounding the cyst incompletely (immunohistochemical staining using SMA, $\times 100$).

천천히 크기가 증가하는 종괴로 나타난다.⁵ 이차성 결막상피 낭종은 외상 혹은 의인성으로 인하여 안와내로 결막상피가 유입(introduction)되어 발생한다.⁶ 문헌에 따르면 안와에서 발생한 결막상피 낭종의 약 2/3가 이차성이고, 그 중에서 절반 이상이 안구적출술 후에 발생한다고 하였다.³ 이와 같이 대부분의 결막상피 낭종은 이차성으로 발생하며 원발성으로 발생하는 경우는 매우 드문 것으로 알려져 있다. 1978년 Jakobiec et al²은 성인 안와에서 발생한 결막상피 낭종 5예를 최초로 기술하였으며, 이후 현재까지 원발성으로 발생한 안와의 결막상피 낭종 28예가 보고되어 있고,^{2,3,5,7,8,10,11} 국내에서는 아직 보고된 바 없다.

원발성 결막상피 낭종의 위치는 약 2/3에서 상비측에 존

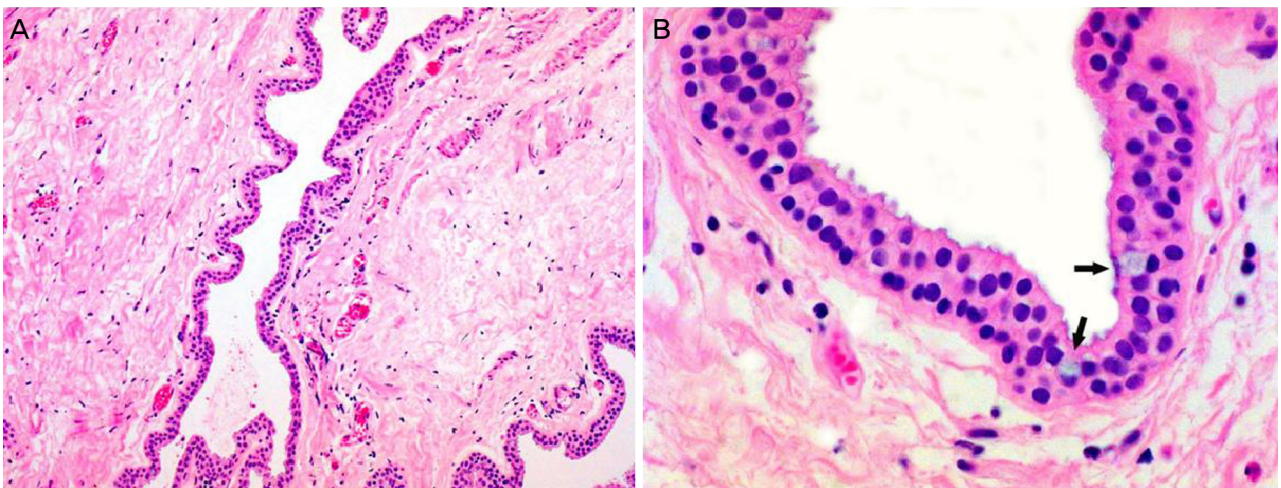


Figure 5. (A) The cystic wall is lined with nonkeratinized, cuboidal, or columnar epithelium with goblet cells (H & E stain, $\times 100$). (B) Higher magnification showed stratified cuboidal or columnar epithelial cells and goblet cells (arrows) (H & E stain, $\times 400$).



Figure 7. Postoperative photograph showing a left esotropia of 6 prism diopters (PD) in the primary position at 2 months after surgery.

재하고, 상이측에 존재하는 경우에는 골의 변형을 일으키는 경우가 많다. 본 증례에서는 종괴가 하비측에 위치하고 있고, 현재까지 하비측에 발생한 결막상피 낭종은 1예가 보고되어 있다.¹¹ 무통성의 부드러운 상내측의 안와 종괴가 전형적으로 나타나는 증상이며, 낭종이 커지면 통증, 압통, 안구편위, 시각장애, 안구운동장애 등의 증상이 나타날 수 있다.^{3,9} 발병 연령은 평균 31세이고, 생후 3개월에서 70세로 다양하다.^{3,7} 성별에 의한 발병률의 차이는 보고된 바 없다.

결막상피 낭종은 전산화단층촬영에서 내부가 균일하고, 주변 조직과의 경계가 분명한 낭성 종괴로 나타나며, 조영증강이 되지 않는다. 자기공명영상에서는 T1 강조 영상에서 주위 뇌 회백질과 비슷한 정도의 신호강도를 보이고, T2 강조 영상에서 고신호강도를 보인다. 주변골의 골 미란과 재형성은 보이지 않는 것이 일반적이나, 유피 낭종에서와 같이 골의 변형을 일으킬 수도 있다. 그러므로 감별진단에 유피 낭종, 누선관 낭종(lacrimal duct cyst), 점액낭종(mucocele) 등의 다른 낭성 종양을 포함시켜야 한다.³

조직병리검사에서 결막상피 낭종은 비각질 중층 편평 상피로 둘러싸여 있고, 피부부속기를 포함하지 않으며, 결막의 상피와 같이 술잔세포를 가질 수 있다. 본 논문의 증례에서는 낭종이 술잔세포를 가지는 입방 혹은 원주 상피로 둘러싸여 있으며, 상피세포의 아래쪽으로 평활근이 관찰되어서 매우 특이한 증례로 이런 경우는 아직 보고된 바 없다.

감별이 필요한 병변으로는 유피 낭종과 결막 유피종이 있는데, 이들은 임상적, 방사선학적, 조직학적으로 차이점이 있다.¹¹ 결막상피 낭종과 결막 유피종은 성인에서 빈도가 높고, 안와의 비측 혹은 상비측에 호발하지만, 유피 낭종은 소아에서 흔하고, 안와의 상이측에 호발한다. 방사선검사에서 결막상피 낭종과 결막 유피종은 종괴의 내부가 균일하고, 골침범이 드물지만, 유피 낭종은 내부가 지방으

로 이루어져 저밀도 음영으로 관찰되고, 인접한 골의 미란이나 침범이 관찰된다. 조직병리검사상 결막 유피종은 결막상피 낭종과 마찬가지로 비각질 중층 편평 상피로 둘러싸여 있으나 피부부속기를 포함하는 것이 차이점이고, 유피 낭종은 각질 중층 편평 상피로 둘러싸여 있다. 초음파검사가 감별진단에 도움이 될 수 있는데, 결막상피 낭종은 종양의 내부에서 낮은 내측반향(internal reflectivity)을 보이지만, 결막 유피종은 중등도의 내측반향을 보인다. 이것은 술잔세포와 피지선(sebaceous gland)의 분비물로 인한 균일하지 않은 내용물에 의한 것으로 생각된다.¹¹

치료는 수술적 절제이며, 비교적 주위 조직과 잘 분리되지만 유착이 있을 수 있기 때문에 주의를 기울여야 한다. 낭종이 상비측에 생긴 경우 주변에 도르래(trochlea), 상사근 등의 중요한 구조물들이 있어서 조심스럽게 박리해야 한다. 술 후 합병증 및 재발을 막기 위해서 낭종이 터지지 않게 완전 절제를 하는 것이 중요하다. 수술적 절제로 종괴의 완전한 절제가 가능하고 재발은 드문 것으로 알려져 있으나, 주변 골의 미란, 안구편위 및 시력저하 등의 증상을 나타낸 환자에서 종괴 절제 3개월 후에 재발을 한 1예가 보고된 바 있다.⁷

본 논문의 증례에서는 안와의 내측에 원발성으로 발생한 결막상피 낭종에 앞쪽 안와절개술을 통하여 절제생검술을 시행하였고, 조직병리학적 검사를 통해 확진하였다. 수술시 낭종의 파열(rupture)과 내직근과의 유착을 주의해서 수술하여 완전한 종괴의 절제에 성공하였다. 술 후 내사시 및 좌측 주시에서 복시가 관찰되었는데, 이는 종괴가 내직근과 유착되어 있었기 때문으로 생각된다.

결론적으로, 원발성 결막상피 낭종은 대부분 무통성의 느리게 자라는 드문 양성 종양이며 안와, 특히 앞측, 상비측에 호발하고 연령이나 성별에 따른 발생의 차이는 없다. 종괴는 비각질 중층 편평 상피세포로 둘러싸인 낭종의 소견을 보이고, 술잔세포를 포함할 수 있다. 치료는 수술적 절제이며, 비교적 주변 조직과 잘 분리되는 낭종이지만 유착이 있을 수 있고, 주변에 중요한 구조물이 있을 수 있기 때문에 술 중 주의를 기울여야 한다. 따라서 성인에서 발생한 안와의 낭성 종양의 경우, 드물기는 하지만 결막상피 낭종을 감별진단에 고려해야 할 것이다.

참고문헌

- 1) Shields JA, Kaden IH, Eagle RC, Jr, Shields CL. Orbital dermoid cysts: clinicopathologic correlations, classification, and management. The 1997 Josephine E. Schueler Lecture. Ophthal Plast Reconstr Surg 1997;13:265-76.
- 2) Jakobiec FA, Bonanno PA, Sigelman J. Conjunctival adnexal cysts and

- dermoids. Arch Ophthalmol 1978;96:1404-9.
- 3) Goldstein MH, Soparkar CN, Kersten RC, et al. Conjunctival cysts of the orbit. Ophthalmology 1998;105:2056-60.
- 4) Shields JA, Shields CL. Orbital cysts of childhood—classification, clinical features, and management. Surv Ophthalmol 2004;49:281-99.
- 5) Rose GE, O'Donnell BA. Congenital orbital cysts associated with the common sheath of superior rectus and levator palpebrae superioris muscles. Ophthalmology 1995;102:135-8.
- 6) McCarthy RW, Beyer CK, Dallow RL, et al. Conjunctival cysts of the orbit following enucleation. Ophthalmology 1981;88:30-5.
- 7) Boynton JR, Searl SS, Ferry AP, et al. Primary nonkeratinized epithelial ('conjunctival') orbital cysts. Arch Ophthalmol 1992;110:1238-42.
- 8) Soll SM, Lisman RD, Harrison W, Weiner M. Conjunctival orbital cyst. Ophthal Plast Reconstr Surg 1994;10:216-9.
- 9) Metz HS, Searl S, Rosenberg P, Sterns G. Giant orbital cyst after strabismus surgery. J AAPOS 1999;3:185-7.
- 10) Imaizumi M, Nagata M, Matsumoto CS, et al. Primary conjunctival epithelial cyst of the orbit. Int Ophthalmol 2007;27:269-71.
- 11) Colombo F, Holbach LM, Naumann GO. Conjunctival cyst and conjunctival dermoid of the orbit. Orbit 2000;19:13-9.
- 12) Owji N, Aslani A. Conjunctival cysts of the orbit after enucleation: the use of trichloroacetic acid. Ophthal Plast Reconstr Surg 2005;21:264-6.
- 13) De Potter P, Kunin AW, Shields CL, et al. Massive orbital cyst of the lateral rectus muscle after retinal detachment surgery. Ophthal Plast Reconstr Surg 1993;9:292-6.
- 14) Johnson DW, Bartley GB, Garrity JA, Robertson DM. Massive epithelium-lined inclusion cysts after scleral buckling. Am J Ophthalmol 1992;113:439-42.
- 15) Cibis GW, Waeltermann JM. Muscle inclusion cyst as a complication of strabismus surgery. Am J Ophthalmol 1985;100:740-1.
- 16) Harris GJ, Beatty RL, Massaro BM, Lewandowski MF. Conjunctival implantation cyst of the orbit. Transient visual loss with pregnancy. Arch Ophthalmol 1989;107:924.
- 17) Ho VT, Rao VM, Flanders AE. Postsurgical conjunctival epithelial cysts. AJNR Am J Neuroradiol 1994;15:1181-3.
- 18) Kushner BJ. Subconjunctival cysts as a complication of strabismus surgery. Arch Ophthalmol 1992;110:1243-5.
- 19) Hornblass A, Bosniak S. Orbital cysts following enucleation: the use of absolute alcohol. Ophthalmic Surg 1981;12:123-6.

=ABSTRACT=

Primary Conjunctival Epithelial Cyst in the Orbit

Chan-Hui Yi, MD¹, Mi Sun Sung, MD², Hyoung-Gyun Kim, MD³,
Kyung-In Woo, MD, PhD¹, Yoon-Duck Kim, MD, PhD¹

Department of Ophthalmology, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine¹, Seoul, Korea

Department of Ophthalmology, Sanggye Paik Hospital, Inje University College of Medicine², Seoul, Korea

Department of Ophthalmology, Kangdong Sacred Heart Hospital, Hallym University College of Medicine³, Seoul, Korea

Purpose: To report a case of a primary conjunctival epithelial cyst in the orbit.

Case summary: A 60-year-old woman was referred for evaluation of proptosis of the left eye, which had developed about 2 years earlier. Upon initial examination, a movable mass was palpated in the medial aspect of the left orbit. Magnetic resonance imaging of the orbit showed a 2.5 cm-sized, ovoid, cystic mass located between the left eyeball and the medial wall of the orbit. Excisional biopsy of the orbital mass was performed. The orbital mass was a well-circumscribed cystic lesion, adherent to the medial rectus muscle. Histological examination revealed that the cyst was lined with multiple layers of cuboidal epithelium with goblet cells. A diagnosis of primary conjunctival cyst was made.

Conclusions: The possibility of primary conjunctival cyst should be considered in the differential diagnosis for an orbital cystic mass.

J Korean Ophthalmol Soc 2010;51(6):885-889

Key Words: Conjunctival epithelial cyst, Orbit

Address reprint requests to Yoon-Duck Kim, MD

Department of Ophthalmology, Samsung Medical Center, Sungkyunkwan University School of Medicine

#50 Irwon-dong, Gangnam-gu, Seoul 135-710, Korea

Tel: 82-2-3410-3568, Fax: 82-3410-0074, E-mail: ydkimoph@skku.edu