아래눈꺼풀에 국한하여 발생한 결합조직형성 모낭상피종

Lower Eyelid Desmoplastic Trichoepithelioma

송도윤 · 노주현

Do Yun Song, MD, Joo Heon Roh, MD

성모안과병원

Sungmo Eye Hospital, Busan, Korea

Purpose: To report a rare case of lower eyelid desmoplastic trichoepithelioma.

Case summary: A 56-year-old woman presented to our clinic with a slow-growing, painless, recurrent mass located in the temporal area of the left lower eyelid margin. Surgical incision had been performed on a similar mass 4 years before. On examination, a 7 × 2-mm firm, nodular, nontender mass was palpable in the left lower eyelid. The lesion was isolated from the surrounding tissues and completely excised. Histopathologically, the excised mass showed small strands of basaloid cells, keratinous cysts, and focal calcification. These findings supported a diagnosis of eyelid desmoplastic trichoepithelioma.

Conclusions: Because of its rarity and solitary features, eyelid desmoplastic trichoepithelioma can be confused with sclerosing basal cell carcinoma. Thus, the goal of surgical therapy should be complete excision; histopathological analysis should be also performed.

J Korean Ophthalmol Soc 2020;61(7):811-814

Keywords: Desmoplastic trichoepithelioma, Eyelid

결합조직형성 모낭상피종은 안면에 주로 나타나는 드문 피부 부속기 양성 종양으로 눈꺼풀, 안와에도 발생할 수 있다.¹ 임상적인 병변은 살색 또는 홍색을 띠고, 윤기가 나며 융기된 구진 혹은 결절로 나타난다.² 병리조직학적으로 결합조직성 기질 내에 종양세포의 좁은 띠 모양 배열과 각질성 낭포를 특징으로 하며, 종양세포가 침윤성 증식을 하고 있는 것과 유사한 소견을 보여 악성 종양과 감별해야 하는 모낭세포 기원의 양성 종양이다.^{3,4} 임상 및 병리조직학적 특징상 단발성 모낭상피종, 한관종, 반상경피증모양 기저세포암 등과 감별해야 한다. 저자들은 현재까지 국내에 보고가 안 된 눈꺼풀에 발생한 결합조직형성 모낭상피종을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례보고

56세 여자가 좌안 아래눈꺼풀의 재발한 종괴를 주소로 내원하였다. 과거력상 4년 전 개인 안과에서 동일 부위의 종괴에 절제술을 시행 받은 병력이 있었다. 종괴는 절제 2년 후 재발하여 통증 없이 크기가 천천히 커지는 양상을 보였다고 하였다. 병력청취상 외상이나 가족력은 없었다. 전안부 소견으로 좌안 아래눈꺼풀 이측에 7 × 2 mm의 표면을 매끄럽고 윤기가 나며 융기된 결절이 보였으나 다른 부위에서는 유사한 종괴가 관찰되지 않았다(Fig. 1). 촉진상 통증은 없었으며, 눈물흘림, 출혈, 시력저하와 같은 다른 증상은 보이지 않았다.

■ Received: 2019. 11. 4. ■ Revised: 2020. 1. 18.

■ Accepted: 2020. 6. 22.

■ Address reprint requests to Joo Heon Roh, MD
Sungmo Eye Hospital, #409 Haeun-daero, Haeundae-gu, Busan 48064, Korea
Tel: 82-51-743-0775, Fax: 82-51-743-0776
E-mail: rhoahn12@gmail.com

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

© 2020 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.

눈꺼풀 종괴의 정확한 진단을 위해 국소마취하 완전절제 및 생검을 시행하였다. 종괴는 하안검 검판에 단단히 유착되어 있었다. 유착된 검판을 포함하여 하안검 검판의 절반을 종괴와 함께 수평절제하였다. 이후 하안검 바깥 피부를 위쪽으로 당겨와 남은 절반의 하안검 검판에 7-0 black silk로 봉합해 눈꺼풀 테두리를 재건하였다. 수술 중 발생한 미세한 출혈은 양극소작기(bipolar cautery)를 이용하여 지혈하였다.

병변부에서 시행한 조직병리검사상 상부 진피에 흩어진 종양세포의 좁은 띠 모양 배열, 각질성낭포 및 치밀한 결합조직 증식성 기질이 관찰되었다(Fig. 2). 해당 소견으로 눈꺼풀의 종괴가 결합조직형성 모낭상피종임을 진단하였다.

Figure 1. The clinical photograph of the left eye. Preoperative photograph shows a 7 × 2 mm-sized firm, nodular, nontender mass on the left lower eyelid margin.

Figure 2. Small strands of basaloid cell (black arrow) and focal calcification (red arrow) is noted. Keratinous cysts (yellow arrow) are founded in desmoplastic or collagenous stroma (H&E, ×100).

종괴 절제 16주 후 경과 관찰 시 절제된 부위는 깨끗하였고, 재발 소견은 보이지 않았다(Fig. 3).

고 찰

모낭상피종은 피부 부속기의 신생물인 양성 상피종으로 다발성(multiple trichoepithelioma), 단발성(solitary trichoepithelioma), 결합조직형성(desmoplastic trichoepithelioma)의 3가지 형태를 갖는다.¹ 다발성 모낭상피종은 대개 상염색체 우성으로 유전되고 구진이나 소결절들이 20세 이전에 안면, 특히 구순과 안검주위에 발생한다. 단발성 모낭상피종은 비유전성이며, 젊은 성인에서 얼굴 중심부에 호발한다. 결합조직형성 모낭상피종은 1977년 Macdonald et al⁵이 sclerosing epithelial hamatoma라고 기술하였으며, 같은 해 Brownstein and Shapiro⁷가 49례를 분석하여 단발성 모낭상피종(solitary trichoepithelioma)과 임상 및 조직병리학적으로 다른 질환으로 명명하였고, 피부 부속기 기원의 양성 종양으로 이해되고 있다.

본 질환의 병리조직학적 소견은 주위와 잘 경계되는 상부진피 내 각질성 낭포 및 결합조직형성 기질이 특징적이며, 종양세포는 난원형의 핵과 소량의 세포질을 포함한 작은 기저모양 세포로 좁은 띠 모양 배열을 하며, 유사분열은 관찰되지 않고, 피하조직까지는 침범하지 않는다.^{6,8} 각질성 낭포는 각질을 함유하며, 파열된 각질성 낭포 주위에 이물 육아종, 석회화 및 골화가 나타나기도 한다.^{3,9,10} 기질은 세포수가 적은 치밀한 콜라겐섬유로 이루어지고 탄력섬유는 감소되어 있다. 본 증례에서도 종양의 좁은 띠 모양 배열, 석회화, 각질성 낭포, 결합조직형성 기질이 관찰되어 결합조직형성 모낭상피종에 합당한 소견을 보였다.

Figure 3. The clinical photograph of the left eye at 16 weeks after excision. Postoperative photograph shows that removal site is clear. No recurrence is observed.

눈꺼풀에 나타나는 결합조직형성 모낭상피종은 희소성과 산발적 특성으로 인해 반상경피증모양 기저세포암, 한관종과 임상 및 병리학적으로 감별해야 할 질환이다.¹¹ 결합조직형성 모낭상피종은 세포의 유사분열이 거의 없고 세포의 비정형성 정도가 크지 않으나, 반상경피증모양 기저세포암에서는 유사분열과 비정형성 변화가 더 크며, 괴사 부위도 관찰할 수 있어 대부분은 조직학적으로 감별이 가능하다.^{12,13} 한관종의 경우 다발성, 양측성으로 눈꺼풀 주변부에 호발하며, 조직학적으로 결합조직형성 모낭상피종에서 보이는 각질성 낭포가 관찰되지 않으며 상부진피에 국한된 것이 특징이다.² 감별이 어려운 경우에는 D10, Bcl-2, Ki-67, Proliferating Cell Nuclear Antigen (PCNA), P53 등을 이용한 면역조직화학적 염색의 도움이 필요하다.^{6,13}

치료 방법은 전기소작법, 냉동요법, 절제술, CO₂ 레이저 소작술 등이 있는데 완전절제 후에는 재발은 거의 없다.¹⁴ 기존에 보고된 결합조직형성 모낭상피종 증례들은 대부분 안면에 발생한 전형적인 증례였으나 본 증례는 눈꺼풀에 발생하였고, 국내 보고된 눈꺼풀 모낭상피종 1건¹⁵의 사례는 종양의 임상양상이 단발성 모낭상피종인 반면 저자들이 경험한 증례는 기존의 보고와 다른 결합조직형성 모낭상피종이었다.

이상에서 저자들이 경험한 예를 바탕으로 결합조직형성 모낭상피종은 임상에서 접할 수 있는 증례이나 반상경피증모양 기저세포암과 임상적 감별이 어렵기 때문에 절제 후 조직병리검사를 시행해야 하며, 불완전 절제로 인한 재발과 술 후 눈꺼풀의 미용적 변화 여부 및 예후 판별을 위해 추적 관찰 시행을 제안하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Allington HV, Allington JH. Eyelid tumors. Arch Dermatol 1968;97:50-65.
- 2) Lim SH, Song YC, Song KY, et al. A case of desmoplastic trichoepithelioma. Korean J Dermatol 2007;45:453-7.
- 3) Oh CH, Kim SN. Desmoplastic trichoepithelioma. Korean J Dermatol 1986;24:547-49.
- 4) Kim YD, Sung GY, Kim DW, Jun JB. A case of desmoplastic trichoepithelioma. Korean J Dermatol 1989;27:470-3.
- 5) Macdonald DM, Jones EW, Marks R. Sclerosing epithelial hamartoma. Clin Exp Dermatol 1977;2:153-60.
- 6) Pham TT, Selim MA, Burchette JL Jr, et al. CD10 expression in trichoepithelioma and basal cell carcinoma. J Cutan Pathol 2006;33:123-8.
- 7) Brownstein MH, Shapiro L. Desmoplastic trichoepithelioma. Cancer 1977;40:2979-86.
- 8) Joo YH, Kwon OS, Moon SE. Short report: a case of desmoplastic trichoepithelioma, showing similar histological features to microcystic adnexal carcinoma. Korean J Dermatol 2005;43:525-8.
- 9) Park JY, Choi YB, Kim KH, Cho KH. Short report: a case of acute hemorrhagic edema of childhood. Korean J Dermatol 2002;40:999-1002.
- 10) Mamelak AJ, Goldberg LH, Katz TM, et al. Desmoplastic trichoepithelioma. J Am Acad Dermatol 2010;62:102-6.
- 11) Kirzhner M, Jakobiec FA, Borodic G. Desmoplastic trichoepithelioma: report of a unique periocular case. Ophthalmic Plast Reconstr Surg 2012;28:e121-3.
- 12) Kirchmann TT, Prieto VG, Smoller BR. Use of CD34 in assessing the relationship between stroma and tumor in desmoplastic keratinocytic neoplasms. J Cutan Pathol 1995;22:422-6.
- 13) Basarab T, Orchard G, Russell-Jones R. The use of immunostaining for bcl-2 and CD34 and the lectin peanut agglutinin in differentiating between basal cell carcinomas and trichoepitheliomas. Am J Dermatopathol 1998;20:448-52.
- 14) Behroozan DS, Goldberg LH, Glaich AS, et al. Mohs micrographic surgery for deeply penetrating, expanding benign cutaneous neoplasms. Dermatol Surg 2006;32:958-65.
- 15) Kim HB, Suh SC, Kim SU, Kwon OW. Trichoepithelioma. J Korean Ophthalmol 1982;23:699-73.

= 국문초록 =

아래눈꺼풀에 국한하여 발생한 결합조직형성 모낭상피종

목적: 아래눈꺼풀에 발생한 결합조직형성 모낭상피종을 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 56세 여자 환자가 좌측 아래눈꺼풀에 발생한 종괴를 주소로 내원하였다. 과거력상 환자는 4년 전 개인 안과에서 절제술을 시행 받은 병력이 있으며, 절제 후 재발하여 통증 없이 크기가 천천히 커지는 양상을 보였다. 내원 당시 좌안 아래눈꺼풀 이측에 7×2 mm의 융기된 결절이 관찰되었다. 진단을 위해 절제 생검하였으며, 절제된 종괴는 주변 조직과 유착되어 있어 가능한 완전절제를 시행하였다. 절제된 종괴는 조직병리검사에서 종양세포의 좁은 띠 모양배열, 각질성 낭포 및 치밀한 결합조직 증식성 기질이 관찰되었다. 이러한 소견으로 눈꺼풀에 발생한 결합조직형성 모낭상피종으로 진단하였다.

결론: 눈꺼풀에 발생하는 결합조직형성 모낭상피종은 회소성과 산발적 특성으로 인해 반상경피증모양 기저세포암과 임상 및 병리학적으로 감별해야 할 질환이며, 수술적 절제 및 조직병리검사를 고려해야 한다.

〈대한안과학회지 2020;61(7):811-814〉

송도윤 / Do Yun Song

성모안과병원
Sungmo Eye Hospital