눈물샘에 발생한 아포크린땀샘낭종

Apocrine Hidrocystoma Presenting as a Lacrimal Gland Mass

이기웅 · 지미정

Ki Woong Lee, MD, Mijung Chi, MD, PhD

가천대학교 길병원 안과학교실

Department of Ophthalmology, Gachon University Gil Medical Center, Incheon, Korea

Purpose: To report a case of apocrine hidrocystoma in the lacrimal gland.

Case summary: A 51-year-old woman presented with a left upper eyelid mass that occurred two years before presenting to hospital. Upon physical examination, a painless palpable mass on the left upper eyelid was observed. Based on slit-lamp examination, a pinkish mass with a well-circumscribed border on the left upper temporal conjunctiva was observed. Orbital computed tomography showed a well-defined contrast enhanced mass of 8 × 9 × 9 mm in the lacrimal lesion. The mass was removed completely under local anesthesia. Biopsy confirmed that the mass was an apocrine hidrocystoma. There was no recurrence at one year postoperatively.

Conclusions: This is the first report of an apocrine hidrocystoma in a lacrimal lesion in Korea. Apocrine hidrocystoma is rarely found on lacrimal gland lesions, but it should be considered in the differential diagnosis of a lacrimal gland mass.

J Korean Ophthalmol Soc 2020;61(8):940-943

Keywords: Hidrocystoma, lacrimal gland, Orbital diseases

아포크린땀샘낭종(Apocrine hidrocystoma)은 아포크린 땀샘에서 기원하는 양성종양으로 발한성 낭종(sudoriferous cyst)으로도 불리며 눈꺼풀종양의 1-5%를 차지한다.¹ 발생 원인으로는 분비선관의 폐쇄로 인한 액체 저류 때문에 생기는 것으로 알려져 있다.² 대개 머리와 목, 겨드랑이, 눈꺼풀에 발생하고 안와주위에서는 잘 발생하지 않는 것으로 알려져 있다.³ 국내에서 아포크린땀샘낭종이 눈물샘 부위에 발생하여 보고된 예는 아직 없어서, 저자들은 눈물샘에

발생한 아포크린땀샘낭종 1예를 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례보고

51세 여자 환자가 좌측 위눈꺼풀 종괴를 주소로 내원하였다. 내원 2년 전에 좌측 위눈꺼풀에 종괴가 발생하여 타 병원 안과에서 결막을 통한 종괴의 절제 생검을 시행받았고, 당시 조직검사에서 층판화된 단백 물질(lamellated proteinaceous materials)로 나타나서 불분명한 소견을 보였다. 수술 2개월 후에 같은 부위에 재발하여 이차적으로 피부절개를 통한 종괴의 절제 생검을 권유 받았으나, 거부하고 본원에 내원하였다.

초진 시 최대교정시력은 우안 1.0, 좌안 1.0이었고, 안압은 정상이었으며 세극등현미경검사와 안저검사상 특이 소견은 없었다. 안구운동검사, 눈물소관관류술 및 안구돌출계

■ Received: 2019. 11. 8. ■ Revised: 2020. 4. 2.

■ Accepted: 2020. 7. 29.

■ Address reprint requests to Mijung Chi, MD, PhD
Department of Ophthalmology, Gachon University Gil Medical Center, #21 Namdong-daero 774beon-gil, Namdong-gu, Incheon 21565, Korea
Tel: 82-1577-2299, Fax: 82-32-467-9302
E-mail: cmj@gilhospital.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.

검사를 포함한 다른 안 소견도 모두 정상이었다. 특별한 안과병력은 없었으며, 전신 상태도 양호하였다. 이학적 검사상 좌측 위눈꺼풀의 가쪽 눈물샘 부위에 종괴가 촉진되었고, 세극등현미경검사에서 좌이측 결막에 무통성의 분홍색을 띄는 8 × 10 mm 크기의 결막하 낭성 종괴가 관찰되었다(Fig. 1). 안와 전산화단층촬영을 시행하였고, 좌측 눈물샘

부위에 8 × 9 × 9 mm 크기의 종괴와 그 주변부의 조영증강이 관찰되었다(Fig. 2). 국소 마취하에 좌측 쌍꺼풀선 절개를 통해서 종양의 절제생검을 시행하였다. 수술 중 눈물샘 부위에 정상 눈물샘 조직과 경계 지어지는 부드러운 분홍색의 단발성 낭성 종괴가 확인되었다. 종괴는 육안상 주위조직과 잘 경계 지어진 섬유조직으로 둘러싸여 있었다(Fig. 3A).

Figure 1. Left upper lid mass at the initial presentation. (A) Left upper lid palpable mass is shown (black arrow). (B) Well-circumscribed, pinkish mass in superotemporal orbit in the lacrimal gland lesion is shown.

Figure 2. Coronal (A) and axial (B) computed tomography scans show a 8 × 9 × 9 mm-sized cystic mass with circumscribed margin in the lacrimal gland fossa (black arrows).

Figure 3. (A) Surgical specimen showing a firm, non-tender, well-defined mass. (B) Apocrine hidrocystoma lined by double-layered cuboidal epithelia with Periodic Acid-Schiff positive material in the cytoplasm and cells of the inner layer showing “decapitation snouts” (black arrow) (hematoxylin and eosin stain, ×400).

병리조직학검사상 낭종의 내벽이 두 층의 분비세포로 구성되어 있고, Periodic Acid-Schiff (PAS) 염색에서 양성을 보이는 전형적인 형태의 아포크린땀샘낭종으로 확진되었다(Fig. 3B). 환자는 수술 이후 특별한 불편감을 호소하지 않았으며 수술 후 1년이 경과한 현재까지 재발 소견이나 새로운 병변은 관찰되지 않았다.

고 찰

아포크린땀샘낭종은 아포크린땀샘에서 분비선관의 폐쇄로 인한 액체 저류 때문에 생기는 양성종양으로 주로 머리와 목, 겨드랑이, 눈꺼풀에 주로 발생한다.⁴ 눈꺼풀을 제외하면 안와주위의 다른 부위에서는 잘 발생하지 않는데 Saunders⁵가 1973년에 영아의 좌측 내안각 부위에서 발생한 증례를 처음 보고하였다. 국내에서는 1998년에 Park et al⁶이 3세 소아의 좌측 아래 안와연에서 발견된 아포크린땀샘낭종을 보고하였고, 2007년에 Kim et al²이 75세 환자의 안외상 후 내안각에 발생한 아포크린땀샘낭종에 대해 보고한 바 있다. 이 중 Park et al⁶의 1예는 소아에서 선천성으로 발생한 경우였고, Kim et al²의 1예는 눈꺼풀에 존재하는 몰샘(Moll's gland)이 외상에 의하여 내안각 피부 안으로 함입되어 발생한 경우였다. 이외에도 Chung et al⁷은 안와에서 발생한 선천성 땀샘낭종이 소아 내사시에 영향을 주었던 경우를, Moon et al⁸은 성인의 안와에서 발생한 땀샘낭종을 보고한 바 있다. 눈물샘 부위에 발생한 예는 매우 드물어 2015년 Mukherjee et al⁴이 29세 남성의 우측 눈물샘 부위에 발생한 3.0 × 1.7 cm 크기의 거대한 아포크린땀샘낭종을 보고하였으나, 국내에서는 아직 눈물샘 부위에 발생한 아포크린땀샘낭종이 보고된 바가 없었다.

임상적으로 아포크린땀샘낭종이 안와 주위에서 발견되는 경우에는 주로 작고 단단한 다발성의 낭종으로 나타난다고 알려져 있으나,⁹ Mukherjee et al⁴의 증례와 본 증례처럼 단발성으로 나타나는 경우도 있다. 따라서 임상양상만으로는 구분이 쉽지 않고, 악성종양인 아포크린 샘암종도 감별해야 하기 때문에 확진을 위해서는 반드시 조직학적 검사가 필요하다.¹⁰

아포크린땀샘낭종은 조직학적으로 apical “decapitation” snouts라는 특징적인 소견이 관찰되면 확인할 수 있는데, 본 증례에서도 내측에 호산구성 세포질들이 끝쪽으로 나란히 나열되어 있고, 그 표면위로 PAS 양성인 과립세포들이 놓여있는 소견을 관찰할 수 있었다(Fig. 3B). 본 증례의 경우 눈물샘 부위에 국한되고 조직검사상 단발성의 경계가 명확한 양성 소견(Fig. 3)이었으나, 악성종양인 아포크린샘암종은 빠른 속도로 진행하며 주변으로 파급되는 임상양상

을 보이기 때문에¹⁰ 조직검사상 악성 소견이 의심된다면 면역조직화학염색을 추가적으로 시행하여 감별하여야 한다. Gross cystic disease fluid protein-15와 Cytokeratin 7 (CK7)에서 양성 반응을 보이는지 확인하고, 슬라이드 재판독을 통해 주변 림프관을 침범하는 소견이 있는지도 확인해서 악성을 감별해야 한다.¹⁰⁻¹²

눈물샘 부위에 주로 나타나는 양성병변으로는 눈물소관낭포(dacryops), 유피낭종(dermoid cyst)과 눈물샘 종괴(lacrimal gland mass) 등이 있으며 이에 대한 감별도 필요하다. Jakobiec et al¹²은 조직검사상 눈물샘조직이 없으면서 낭종 내 내용물이 oily yellowish viscous fluid이면 눈물소관낭포는 배제할 수 있다고 하였다. 잘 알려져 있지 않으나, 눈물소관낭포에서도 apocrine 분비가 흔하기 때문에 안와주위의 다른 아포크린땀샘낭종과 잘 감별되어야 한다.¹³ 유피낭종과 눈물샘종괴는 조직검사를 통해 특징적인 조직이나 소견이 없다면 배제할 수 있다. 아포크린땀샘낭종의 치료로는 재발을 막기 위해 낭벽을 포함한 완전절제가 알려져 있고,⁴ 본 증례에서도 완전절제 2년 후 현재까지 재발 소견은 없었다. 아포크린땀샘낭종은 눈꺼풀을 제외한 안와 특히, 눈물샘 부위에서 발생한 증례는 국내에서 아직 보고된 적이 없어 국내 최초로 보고하는 바이며, 이는 눈물샘 부위에 발생한 양성종양의 감별진단시 고려되어야 할 것으로 생각한다.

REFERENCES

- 1) Mims J, Rodrigues M, Calhoun J. Sudoriferous cyst of the orbit. Can J Ophthalmol 1977;12:155.
- 2) Kim JY, Lee EK, Lee YH, Lee SB. Apocrine sudoriferous cyst in medial canthal region occurred after trauma. J Korean Ophthalmol Soc 2007;48:1562-6.
- 3) Freedberg I, Wolff K, Austen K. Dermatology in general medicine, 5th ed. New York: Mc Graw-Hill Inc., 1999;856-8.
- 4) Mukherjee B, Desai A, Krishnakumar S, Biswas J. A giant apocrine hidrocystoma presenting as lacrimal gland mass. Orbit 2015; 34:342-4.
- 5) Saunders JF. Congenital sudoriferous cyst of the orbit. Arch Ophthalmol 1973;89:205-6.
- 6) Park SJ, Jang JW, Chin HS. Sudoriferous cyst of the orbit. J Korean Ophthalmol Soc 1998;39:1288-90.
- 7) Chung JK, Lee SJ, Kang SK, Park SH. Congenital sudoriferous cyst within the orbit followed by esotropia. Korean J Ophthalmol 2007;21:120-3.
- 8) Moon KY, Lee DW, Ahn M. A case of idiopathic orbital sudoriferous cyst in an adult. J Korean Ophthalmol Soc 2013;54:962-5.
- 9) Haider E, Saigal G, Gill D, et al. Congenital orbital sudoriferous cyst: radiological findings. Pediatr Radiol 2005;35:1142-4.
- 10) Cooper P. Carcinomas of sweat glands. Pathol Annu 1987;22 Pt 1:83-124.
- 11) Lim HB, Kim KN, Song KY, Lee SB. A case of apocrine ad-

- enocarcinoma of the upper eyelid. J Korean Ophthalmol Soc 2014; 55:432-6.
- 12) Jakobiec FA, Bhat P, Kropp TM. Palpebro-orbital apocrine cystadenoma: immunohistochemical verification of a unique variant with a critical differential diagnosis. Ophthalmic Plast Reconstr Surg 2010;26:245-9.

- 13) Kacerovska D, Michal M, Ricarova R, et al. Apocrine secretion in lacrimal gland cysts (dacryops): a common but underrecognized phenomenon. J Cutan Pathol 2011;38:720-3.

= 국문초록 =

눈물샘에 발생한 아포크린땀샘낭종

목적: 눈물샘에 발생한 아포크린땀샘낭종 1예를 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 51세 여자 환자가 내원 2년 전에 처음 발생한 좌측 위눈꺼풀 종괴를 주소로 내원하였다. 초진 시 좌측 위눈꺼풀 외측의 눈물샘 부위에 만져지는 무통성 종괴가 관찰되었으며, 세극등현미경검사서 좌측 위눈꺼풀 결막에 경계가 잘 지어진 분홍색 종괴가 관찰되었다. 안와 전산화단층촬영에서 좌안의 상이측 결막에 8 x 9 x 9 mm 크기의 조영증강이 된 비교적 경계가 분명한 종괴가 관찰되었다. 국소 마취하에 좌측 위눈꺼풀의 눈물샘 부위에 발생한 낭성 종괴에 대해 절제 생검술을 시행하였고, 병리조직학검사에서 아포크린땀샘낭종으로 확인되었다. 술 후 1년까지 재발 소견은 관찰되지 않았다.

결론: 아포크린땀샘낭종은 눈물샘 부위에 발생하는 경우가 극히 드물어 국내에서는 첫 보고이며, 눈물샘 부위 종괴의 감별진단에서 고려되어야 하겠다.

〈대한안과학회지 2020;61(8):940-943〉

이기웅 / Ki Woong Lee

가천대학교 길병원 안과학교실
Department of Ophthalmology,
Gachon University Gil Medical Center