결막편평세포유두종 절제 병력이 있는 젊은 환자에서 발생한 누낭 편평세포암종

Squamous Cell Carcinoma in the Lacrimal Sac of Young Patient Who Had Conjunctival Squamous Papilloma

이동우¹ · 박미화¹ · 조용운¹ · 김성재^{1,2} · 서성욱^{1,2}

Dong Woo Lee, MD¹, Mi Hwa Park, MD¹, Yong Wun Cho, MD¹, Seong Jae Kim, MD, PhD^{1,2},
Seong Wook Seo, MD, PhD^{1,2}

경상대학교 의과대학 경상대학교병원 안과학교실¹, 경상대학교 건강과학연구원²

Department of Ophthalmology, Gyeongsang National University Hospital, Gyeongsang National University College of Medicine¹, Jinju, Korea
Gyeongsang Institute of Health Science, Gyeongsang National University², Jinju, Korea

Purpose: To report a squamous cell carcinoma in the lacrimal sac of a young patient.

Case summary: A 30-year-old female patient who had a history of conjunctival squamous papilloma resected at 15 years of age complained of pain and a mass around the right lacrimal sac that had occurred 1 week prior. Antibiotic treatment for 10 days under suspicion of dacryocystitis did not relieve her symptoms. After being diagnosed with lacrimal sac obstruction after dacryocystography, a 1.7 × 1.7 cm round mass was found on orbit non-contrast computed tomography. Endonasal dacryocystorhinostomy and excisional biopsy were performed. Histopathological examination revealed the initial invasive squamous cell carcinoma. An additional resected tissue biopsy was performed later. The mass diagnosed as carcinoma was completely resected and it was confirmed that there were no malignant cells around the resected area.

Conclusions: Squamous cell carcinoma of the lacrimal sac is rare and is known to be less common in young patients. It is believed that this case should not exclude the possibility of malignant tumors of the lacrimal sac regardless of age. Given that squamous cell carcinoma of the lacrimal sac is associated with a high-risk of human papillomavirus, this disease should be considered if there is a history of papilloma.

J Korean Ophthalmol Soc 2021;62(5):688-691

Keywords: Nasolacrimal duct, Papilloma, Papillomavirus, Squamous cell carcinoma

누낭에 생기는 원발종양은 매우 드물며 상피종양이 가장 흔하게 나타난다고 알려져 있다.¹ 누낭종양은 젊은 환자에서

서도 발병할 수는 있지만, 평균 52세에서 발생하며 그중 55%에서 악성 종양으로 나타난다. 임상적으로 나타나는 증상 및 증후로는 눈물흘림(53%), 재발성 누낭염(38%), 누낭 종괴(36%)가 있다.² 이전 국내문헌에 따르면, 누낭에 편평세포암종이 발생한 증례가 적게 보고되었고 증례 모두 고령의 환자였으며, 편평세포암종 발견 전 결막편평세포유두종을 절제한 병력을 가진 증례는 없었다.³⁻⁵ 저자들은 결막편평세포유두종을 절제한 병력이 있는 건강한 32세 여자 환자에서 눈물흘림과 우측 눈물길하부부위에 덩이가 발견되어 내원하여 누낭비강연결술과 절제생검 시행 후 편평세

■ Received: 2020. 10. 21. ■ Revised: 2020. 11. 18.

■ Accepted: 2021. 4. 22.

■ Address reprint requests to **Seong Wook Seo, MD, PhD**
Department of Ophthalmology, Gyeongsang National
University Hospital, #79 Gangnam-ro, Jinju 52727, Korea
Tel: 82-55-750-8171, Fax: 82-55-758-4158
E-mail: stramast@naver.com

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

© 2021 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.

포암종으로 진단된, 흔하게 나타나지 않는 젊은 나이의 결막편평세포유두종과 관련된 누낭 편평세포암종을 경험하여 이를 보고하고자 한다.

증례보고

15년 전 우안 하비측 결막종물을 제거한 후 조직검사에서 결막편평세포유두종으로 확진 받은 30세 여자 환자가 1주 전부터 발생한 우측 하부 눈물길 부위의 통증과 종괴를 주소로 내원하였다. 누낭염 의심하에 10일간의 항생제 치료 후 눈물주머니조영술을 시행하여 우측 비루관폐쇄를 진단받았다(Fig. 1A). 이학적 검사상 우측 하부 눈물길 부위로 덩이가 촉지되며 발적과 압통 소견이 있었다(Fig. 1B). 안와 컴퓨터단층촬영검사를 시행하였고 1.7×1.7 cm의 경계가 분명한 원형의 종괴가 관찰되었으며, 본원 영상 판독상

누관낭종, 누낭류 의심 소견이 관찰되었다(Fig. 1C, D). 혈액검사상 특이 소견은 관찰되지 않았으며, 최대교정시력은 우안 1.0, 좌안 0.9로 측정되고, 안압은 비접촉 안압계로 우안 10 mmHg, 좌안 12 mmHg로 측정되었다. 전안부 및 안저검사상 이상 소견은 관찰되지 않았다. 비루관폐쇄를 해소하기 위해 내시경하 누낭비강연결술과 파리 모양의 불규칙한 형태를 가진 종괴 일부를 절제생검을 시행하였다. 조직병리학적 검사 결과상 초기 침습적 편평세포암종으로 진단되어 이후 완전 절제를 위한 재수술을 시행하였다. 수술은 피부 절개를 통해 접근하여 종괴와 그 주변부 조직을 절제하였고(Fig. 2A), 동결절편 생검 결과상 주변부에서 악성 세포 없음을 확인한 뒤 수술을 끝마쳤다. 코쪽 점막에서 제거한 병변에서 만성 염증 반응성 상피증식증 소견이 관찰되었으며, 적출된 종괴는 조직병리학적 검사 결과 편평세포암종으로 진단되었다(Fig. 2B). 수술 이후 추가적인 검사

Figure 1. Gross and examination photographs of the lesion. (A) Dacryocystography shows that the contrast agent does not flow through the right nasolacrimal duct. (B) Gross photograph of the patient. The mass (black arrow) was palpated around the lacrimal sac, and there were redness and tenderness. (C, D) Orbit non-contrast computed tomography shows round mass (1.7×1.7 cm, white arrow) at the level of the right lacrimal duct & lacrimal sac (C: coronal view, D: axial view).

및 치료 필요성을 확인하기 위하여 본원 혈액종양내과에 의뢰하였고, 양전자컴퓨터단층촬영(positron emission tomography-computed tomography, PET-CT), 복부, 흉부 컴퓨터단층촬영을 시행하였다. 검사상 전이 소견은 보이지 않고 완전절제가 된 것으로 생각되어 경과 관찰 중이다.

고 찰

누낭종양의 경우 크게 상피종양, 비상피종양 2가지로 분류되며 이 중 상피종양이 상대적으로 흔하게 나타날 수 있다.⁶ 누낭에 생긴 원발종양은 극히 드물지만, 재발과 전이에 대한 장기간 경과 관찰을 필요로 하며 생명에 치명적일 수 있다.^{7,8} 누낭 상피종양은 누낭벽과 동일하게 거짓중층원주상피로 이루어진 부비강 또는 안와로 직접 퍼지거나 폐로 전이 가능하기에,^{1,6} 전신검사를 필요로 한다. 본 증례의 환자의 경우에는 PET-CT, 복부, 흉부 컴퓨터단층촬영을 시행하였고 결과상에서 특별한 이상은 발견되지 않았다.

구인두 편평세포암의 원인인자인 고위험사람유두종바이러스는 결막과 누낭의 이형성병변 및 악성병변에서 보고되기도 한다. 이 사람유두종바이러스는 이중 가닥 원형 DNA 바이러스로 100가지가 넘는 유형이 있고 그중에서 14가지 이상의 고위험사람유두종바이러스 유형이 발암성 인자로 여겨지며,⁹ Afroogheh et al¹⁰은 누낭 편평세포암종에서 고위험사람유두종바이러스 양성률은 89%까지 보고된다고 하였다. 본 증례 환자는 어릴 적 하비측 결막편평세포유두종을 제거한 수술력이 있어, 바이러스 감염이 원인이 될 수 있음을 생각해볼 수 있다. Wang et al⁹은 이미 감염된 바이

러스에 대한 치료 목적의 백신의 개발은 아직 진행이 더딘 상황이지만, 사람유두종바이러스 예방백신은 관련 암의 70-90%를 예방할 수 있다고 하였다. 따라서 본 증례처럼 유두종이 발견된 경우 사람유두종바이러스 검사 및 예방적 백신 접종도 고려해볼 가치가 있다.

국내보고에 따르면 Lee et al¹¹은 누낭에 발생한 양성신생물의 하나인 편평상피세포 유두종을 보고하였다. 편평세포암종에 대해서는 Lee et al³이 55세 환자에서 누낭에 발생한 편평세포암종에 대해서 국내 최초로 보고한 이래 Jang et al⁴이 63세 환자에서 방사선 치료로 호전된 눈물주머니 원발 편평세포암종을 보고하고 Chung and Son⁵이 69세 환자에서 자연관해된 누낭에 발생한 편평세포암종에 대해 보고하였다. 이처럼 편평상피세포 유두종 및 편평세포암종의 누낭에서의 발생은 매우 드물게 알려져 있으며, 국내에서는 본 증례에서처럼 유두종이 발생하고 편평세포암종이 발생한 증례는 없었다. 비록 누낭에 직접적으로 발생한 편평상피세포 유두종은 아니었으나, 하비측 결막에 발생한 상태로 누낭에 발생한 편평세포암종과 인과관계가 있을 것으로 생각된다. 또한 이전의 알려진 증례는 모두 고령에서 발생한 증례이나, 본 증례는 젊은 건강한 여성에서 발생한 증례로 젊은 나이의 건강한 사람에서도 누낭에 편평세포암종이 발생 가능하며 특히 결막편평세포유두종의 병력이 있는 경우 더욱 의심해봐야 함을 시사하고 있다.

본 증례는 젊은 여성인 점과 임상양상을 고려하여 누낭염 및 양성 종양을 먼저 고려하였고, 비루관폐쇄를 해소하기 위한 수술을 시행하는 도중 비정형적 형태의 병변을 조직검사하여 편평세포암종으로 진단되었다. 종양의 진행 정

Figure 2. Tumor resected after surgery. (A) Gross photograph shows a mass with an irregular shape. (B) Microscopic appearance of squamous cell carcinoma *in situ*. Cells showing atypical nuclei in full thickness of epithelium (hematoxylin and eosin staining, $\times 400$).

도가 초기에 해당되어 완전절제술을 시행하였고, 뼈와 임파선 및 절제 변연에 전이 소견은 보이지 않아 수술 후 방사선 치료⁹는 시행하지 않았다. 본 증례를 통해, 연령과 상관없이 누낭의 악성 종양 발생 가능성을 배제해서는 안 될 것으로 생각되며, 누낭 편평세포암종은 고위험 사람유두종 바이러스 감염과 연관성 있기에 병변이 종양으로 의심될 경우 이 질환을 의심해보아야 할 것으로 생각된다.

REFERENCES

- 1) Lin Z, Philpott C, Sisson K, Hemmant B. Lacrimal sac primary squamous cell carcinoma with synchronous tonsillar primary squamous cell carcinoma. Orbit 2020;39:374-8.
- 2) Stefanyszyn MA, Hidayat AA, Pe'er JJ, Flanagan JC. Lacrimal sac tumors. Ophthalmic Plast Reconstr Surg 1994;10:169-84.
- 3) Lee KC, Kwon SW, Baek SH. A case of squamous cell carcinoma of the lacrimal sac. J Korean Ophthalmol Soc 2003;44:1914-8.
- 4) Jang SS, Kang HR, Koh SI, Kim SD. A case of squamous cell carcinoma originating from the lacrimal sac. J Korean Ophthalmol Soc 2003;44:2423-7.
- 5) Chung H, Son J. Spontaneous regression of lacrimal sac squamous cell carcinoma. J Korean Ophthalmol Soc 2016;57:1294-8.
- 6) Krishna Y, Coupland SE. Lacrimal sac tumors-a review. Asia Pac J Ophthalmol (Phila) 2017;6:173-8.
- 7) Montalban A, Liétin B, Louvrier C, et al. Malignant lacrimal sac tumors. Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis 2010;127:165-72.
- 8) Parmar DN, Rose GE. Management of lacrimal sac tumours. Eye (Lond) 2003;17:599-606.
- 9) Wang R, Pan W, Jin L, et al. Human papillomavirus vaccine against cervical cancer: opportunity and challenge. Cancer Lett 2020;471:88-102.
- 10) Afrogheh AH, Jakobiec FA, Hammon R, et al. Evaluation for high-risk HPV in squamous cell carcinomas and precursor lesions arising in the conjunctiva and lacrimal sac. Am J Surg Pathol 2016;40:519-28.
- 11) Lee JB, Huh K, Lee TS. A case of squamous cell papilloma of the lacrimal sac. J Korean Ophthalmol Soc 1991;32:311-5.

= 국문초록 =

결막편평세포유두종 절제 병력이 있는 젊은 환자에서 발생한 누낭 편평세포암종

목적: 젊은 환자에서 흔하게 나타나지 않는 누낭 편평세포암종을 경험하여 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 15년 전 하비측 결막편평세포유두종을 절제한 적 있는 30세 여자 환자가 1주 전부터 발생한 우측 하부눈물길 부위의 통증과 종괴를 주소로 내원하였다. 누낭염 의심하에 10일간 항생제 치료하였으며, 영상학적 검사상 비루관폐쇄 진단받은 후 1.7×1.7 cm 크기의 누관 낭종, 누낭류 의심 소견으로 내시경하 누낭비강연결술과 절제생검을 시행하였다. 조직병리학적 검사 결과상 초기 침습적 편평세포암종으로 진단되어 이후 추가적인 절제생검을 시행하였다. 암종으로 진단된 종괴는 완전절제를 시행하였으며, 절제된 주위로 악성 세포가 없음을 확인하였다.

결론: 누낭 편평세포암종은 드물게 나타나며 젊은 환자에게는 더 흔하지 않은 것으로 알려져 있다. 본 증례를 통해 연령과 상관없이 누낭의 악성 종양 발생 가능성을 배제해서는 안 될 것으로 생각되며, 누낭 편평세포암종은 고위험 사람유두종바이러스와 연관성이 있기에 결막편평세포유두종의 병력이 있는 경우 고려해야 되는 질환으로 생각된다.

(대한안과학회지 2021;62(5):688-691)

이동우 / Dong Woo Lee

경상대학교 의과대학 경상대학교병원 안과학교실
Department of Ophthalmology,
Gyeongsang National University Hospital,
Gyeongsang National University College of Medicine