



안구바깥 골성 분리종 2례

Two Cases of Epibulbar Osseous Choristoma

김주미 · 김경남 · 이연희 · 성재연 · 이성복

Ju Mi Kim, MD, Kyoung Nam Kim, MD, PhD, Yeon Hee Lee, MD, PhD, Jae Yun Sung, MD,
 Sung Bok Lee, MD, PhD

충남대학교 의과대학 안과학교실

Department of Ophthalmology, Chungnam National University College of Medicine, Daejeon, Korea

Purpose: To report two cases of epibulbar osseous choristoma and a review of the literature.

Case summary: A 26-year-old male and a 50-year-old female without any past medical history or history of ocular trauma were referred to our clinic due to an incidental epibulbar mass. The masses were located in superotemporal subconjunctiva and inferotemporal subconjunctiva, respectively, and excisional biopsies were performed. The masses revealed epibulbar osseous choristoma. There was no recurrence of disease or postoperative complication.

Conclusions: When asymptomatic subconjunctival or an extraocular mass especially located at the temporal side is found, epibulbar osseous choristoma should always be considered.

J Korean Ophthalmol Soc 2020;61(10):1212-1215

Keywords: Epibulbar osseous choristoma, Epibulbar osteoma, Subconjunctival osteoma

분리종(choristoma)은 정상 조직이 본래 있어야 할 위치 이외의 장소에 나타나는 종양으로^{1,2} 안구바깥에 분리종이 발생한 경우 유피낭종, 피부지방종, 복합 분리종, 그리고 골성 분리종 순의 빈도로 나타난다고 알려져 있다.¹ 이 중 안구바깥 골성 분리종(epibulbar osseous choristoma)은 결막하 골종(subconjunctival osteoma)이라고도 하며, 안구 주위에 발생하는 분리종 중에서도 매우 드문 질환으로¹ 1863년 Von Graefe²에 의해 처음 보고되었다. 안구바깥 골성 분리종은 주로 상외측 결막하 혹은 상공막에 부착된 형태로 발

견되며 종종 외안근을 침범하기도 한다.¹ 조직검사 결과 대부분은 독립된 골성 분리종이나 10% 정도에서 다른 분리종 조직과 동반되어 나타나기도 한다.^{1,3,4} 감별진단해야 할 질환으로는 유피종, 상피의 봉입낭, 안와지방탈출, 유두종, 피부지방종 등이 있다.¹ 안구바깥 골성 분리종은 매우 드물게 발생하는 질환으로 아직까지 이에 대한 국내 보고는 없다. 이에 저자들이 경험한 안구바깥 골성 분리종 2예를 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례보고

증례 1

26세 남자가 10일 전에 발생한 좌안 충혈로 개인 병원에서 진료 중 좌안 상외측의 결막하 종괴가 발견되어 전원되었다. 외상이나 전신적 감염, 특히 병력은 없었고, 통증을 포함한 다른 동반 증상은 없었으며, 전원 당시에는 충혈도 관찰되지 않았다. 초진 시 시력 및 안압은 정상이었고, 전

- Received: 2020. 4. 2. ■ Revised: 2020. 4. 27.
- Accepted: 2020. 9. 18.
- Address reprint requests to **Sung Bok Lee, MD, PhD**
 Department of Ophthalmology, Chungnam National University Hospital, #282 Munhwa-ro, Jung-gu, Daejeon 35015, Korea
 Tel: 82-42-280-7604, Fax: 82-42-255-3745
 E-mail: sblee@cnu.ac.kr

* 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.

안부에 결막하 종괴 이외의 특이 소견은 없었다. 좌안 상이측 결막에 7 × 6 mm 크기의 비교적 경계가 명확한 융기된 고형성 종괴가 관찰되었다(Fig. 1A). 국소마취하 결막아래 종괴를 절제생검하였다. 종괴는 육안상 6 × 5 mm 크기의 백색의 원반형 조직이었다(Fig. 1B). Hematoxylin and eosin 염색을 이용한 병리조직검사에서 성숙된 골조직이 확인되었고 최종적으로 안구바깥 골성 분리종으로 진단되었다(Fig. 1C). 환자는 절제생검 이후 특별한 불편감을 호소하지 않았으며 1년 뒤까지 재발 소견은 없었다.

증례2

50세 여자가 두통에 대한 뇌 자기공명영상검사 후 우연히 발견된 좌측 안와의 종괴로 전원되었다. 외상이나 전신적 감염, 특이 병력은 없었다. 안와 단층촬영검사 결과 좌안 근원추 내에 해면혈관종이 있었으며 하이측 안구바깥에서 5 mm 크기의 석회화 병변이 발견되었다(Fig. 2A). 시력 및 안압은 정상이었다. 하이측의 석회화 병변은 안구 적도부 근처에 위치하여 육안상으로 보이지 않았으나 아래눈꺼풀 외측에서 깊게 위치하는 단단하고 유동성이 있는 종괴가 촉지되었다. 전신마취하 좌안의 해면혈관종 제거수술을

하기로 하였고 동시에 하이측의 석회화 병변도 절제생검하기로 하였다. 안구 하이측 결막아래에 위치한 종괴는 5 × 5 mm 크기의 백색 판형 조직이었다(Fig. 2B). Hematoxylin and eosin 염색을 이용한 병리조직검사에서 최종적으로 안구바깥 골성 분리종으로 진단되었다(Fig. 2C). 환자는 절제생검 이후 특별한 불편감을 호소하지 않았으며 술 후 6개월까지 재발 소견은 없었다.

고 찰

안구바깥 골성 분리종(epibulbar osseous choristoma)은 정상 골조직이 결막 또는 상공막에 종괴 형태로 나타나는 것으로 1863년 Von Graefe²에 의해 결막하 골종(subconjunctival osteoma)이라는 명칭으로 처음 보고되었다. 이후 1940년 Ballantyne⁵에 의해 안구바깥 골종(epibulbar osteoma)이라는 이름이 처음 명명되었고 Beckman and Sugar⁶가 안구바깥 골성 분리종(epibulbar osseous choristoma)이라는 용어를 처음 소개하여 사용되기 시작하였다.

안구바깥 골성 분리종은 매우 드문 질환이다.¹ 1863년부터 현재까지 전 세계적으로 77명의 환자에서 나타난 78건이 보고되었다.¹⁻¹⁵ 저자들은 보고된 78건의 안구바깥 골성

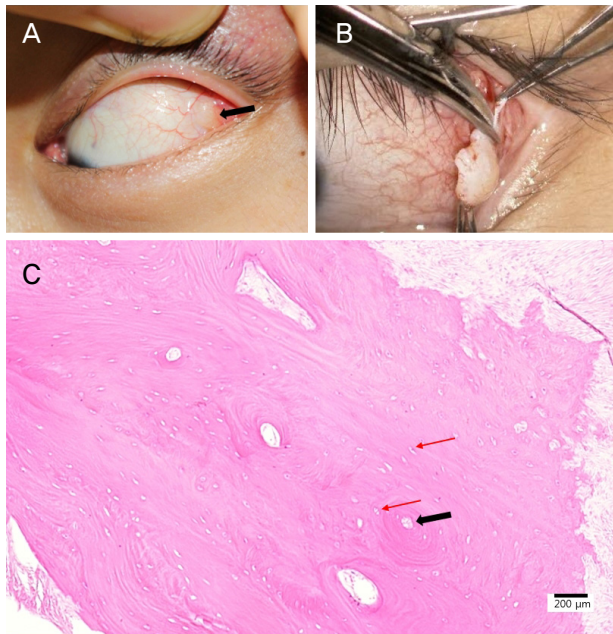


Figure 1. Case 1. (A) The clinical appearance of the left eye in a 26-year-old man with epibulbar osseous choristoma (arrow). (B) Intraoperative image of resection of the epibulbar osseous choristoma. Grossly, the excised lesion has a bony consistency and revealed a 6 × 5 × 2 mm³, whitish discoid mass. (C) Pathology specimen shows mature bone with Haversian canals (black arrow) and osteocytes (red arrows, hematoxylin and eosin stain [×200]).

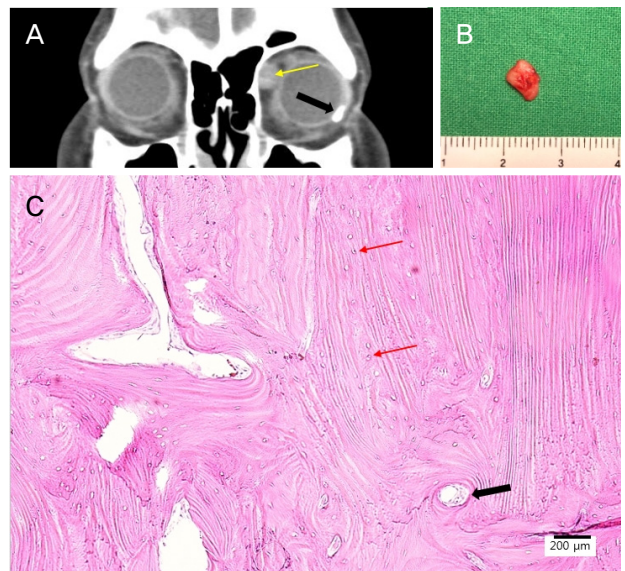


Figure 2. Case 2. (A) A 50-year-old woman with epibulbar osseous choristoma showing calcification (black arrow) and cavernous hemangioma (yellow arrow) on computed tomography. (B) Grossly, the excised lesion has a bony consistency and revealed 5 × 5 × 0.5 mm³ whitish placoid mass. (C) Pathology specimen shows mature bone with Haversian canals (black arrow) and osteocytes (red arrows, hematoxylin and eosin stain [×200]).

분리종 증례에 대해 문헌 고찰을 시행하고 저자들이 경험한 증례 2건의 임상양상을 이와 비교하고자 하였다.

성별이 명시된 53건의 안구바깥 골성 분리종 중에서 34건(64.2%)이 여성에서 발생하였고, 좌우가 명시된 54건의 안구바깥 골성 분리종 중 34건(62.9%)이 우안에 위치하여, 여성과 우안에서 더 많이 보고되었으나, 저자들이 경험한 증례는 남, 여 1명씩이었고, 2안 모두 좌안에서 발생하였다.

발견된 위치가 명시된 68건의 증례 중 52건(76.5%)이 상이측에 위치하여 가장 흔한 위치였으며, 이측 14건(20.5%), 하이측 1건(1.5%), 상측 1건(1.5%)의 순서로 나타났다. 저자들이 소개한 증례 1은 상이측 결막아래에 위치하여 안구바깥 골성 분리종의 전형적인 임상양상을 보였다. 그러나 증례 2는 하이측 결막아래에서 안구바깥 골성 분리종이 위치한 경우로 현재까지 보고된 증례들과 비교할 때 매우 드문 위치였다.

안구바깥 골성 분리종은 대체로 결막아래 혹은 테논에 결합된 형태로 발견된다.¹ 그러나 상공막에 단단하게 부착되어 있거나^{1,3,7} 외안근을 침범한 형태가 발견되기도 한다.¹ 종괴의 부착 정도에 대해 기술한 증례 49건을 종합해보면 30건은 결막 아래 혹은 테논낭에 느슨하게 결합한 형태로 발견되었고(61.2%), 12건은 상공막에 단단하게 부착된 형태로 발견되었다(24.5%). 외안근막에 부착된 형태로 발견된 종괴도 7건(14.3%) 보고되었으며, 이 중 6건은 외직근, 1건은 상직근에 부착된 형태였다.¹ 저자들이 경험한 두 증례 모두 결막하에 느슨하게 결합한 형태로 주위 조직과의 단단한 부착은 관찰되지 않았다.

안구바깥 골성 분리종의 발병 기전은 명확하지 않다.⁴ 외상이나 염증이 종괴의 발생과 성장을 촉진한다고 주장하는 일부 보고가 있다.¹ 그러나 안구바깥 골성 분리종은 배아만능 중간엽(pluripotential mesenchyme)의 비정상적 발달에 의한 선천적 병변이며 그 크기가 증가하지 않는다는 것이 지배적 이론이다.⁸ 안구바깥 골성 분리종은 양성 종양으로 지금까지 안구바깥 골성 분리종이 안구 내로 침범하거나 악성 변화를 보인 보고는 없다.⁹

종괴가 발견된 나이는 출생 직후부터 79세까지 다양한데, Tsai et al¹⁰은 우연히 발견된 안구바깥 골성 분리종을 79세의 환자에서 보고한 바 있다. 저자들이 경험한 두 증례 모두 환자가 특별한 증상이나 징후를 느끼지 못한 채 생활하다가 우연히 병변을 발견하였다. 이처럼 안구바깥 골성 분리종은 선천적 병변이라 여겨짐에도 증상을 유발하는 경우가 많지 않아 어떤 연령의 환자에서도 진단될 수 있다.

안구바깥 골성 분리종은 전형적인 조직검사 양상을 보인다.³ 전체적 조직은 성숙된 골조직이 섬유결합조직에 둘러싸인 모습이며 하버스관을 동심원 형태로 겹겹히 둘러싼

골층판의 모습이 특징적으로 나타난다.¹ 대부분의 안구바깥 골성 분리종은 독립된 형태로 존재하나 총 80건 중 11건(13.8%)의 증례보고에서 다른 분리종과 동반된 안구바깥 골성 분리종을 보고하였다.^{1,3,4} 이들은 골조직 외에 연골, 눈물샘, 신경, 결합조직, 지방조직으로 이루어진 분리종을 동반하고 있었다.

안구바깥 골성 분리종은 진단 및 미용적 목적으로 환자가 제거를 원할 때, 또는 염증이나 눈물흘림 등의 증상을 유발할 때 수술적 제거를 시행할 수 있다.⁹ 수술적 제거가 고려될 경우 술 전 영상학적 검사가 유용하다.¹ 술 전 전산화단층촬영 또는 초음파촬영을 통해 술자는 종괴가 공막이나 외안근에 단단하게 유착되어 있는지를 알 수 있고 이로 인해 수술 중 예상치 못한 안구천공이나 외안근 파열을 대비할 수 있기 때문이다.¹ 또한 병변이 직근과 공막에 단단하게 유착될 경우도 있어 술자는 영상학적 검사 후 사시수술, 드물게는 공막이식도 염두에 두고 수술에 임해야 한다.⁸

저자들은 우연히 발견된 결막하 종괴에 대한 절제술 시행 후 안구바깥 골성 분리종을 진단한 2예를 보고하고자 한다. 안구바깥 골성 분리종은 드문 질환이지만 어떤 연령과 성별의 환자에서도 진단될 수 있다. 따라서 특히 상이측에서 무증상의 결막하 혹은 안구바깥의 종괴가 발견될 경우 안구바깥 골성 분리종을 염두에 두어야 하겠다.

REFERENCES

- 1) Gayre GS, Proia AD, Dutton JJ. Epibulbar osseous choristoma: case report and review of the literature. *Ophthalmic Surg Lasers* 2002;33:410-5.
- 2) Von Graefe A. Tumor in submucosal tissue from peculiar lid-conjunctiva. *Klin Monbl Augenheilkd* 1863;1:23.
- 3) Shields CL, Qureshi A, Eagle RC Jr, et al. Epibulbar osseous choristoma in 8 patients. *Cornea* 2012;31:756-60.
- 4) Vachette M, Moulin A, Zografos L, Schalenbourg A. Epibulbar osseous choristoma: a clinicopathological case series and review of the literature. *Klin Monbl Augenheilkd* 2012;229:420-3.
- 5) Ballantyne AJ. Two cases of epibulbar osteoma. *Ophthalmologica* 1940;99:87-95.
- 6) Beckman H, Sugar HS. Episcleral osseous choristoma--report of two cases. *Arch Ophthalmol* 1964;71:377-8.
- 7) Kong FX, Zou JY, Ma X. Epibulbar osseous choristoma in the lateral rectus. *Chin Med J (Engl)* 2017;130:1763-4.
- 8) Duke-Elder S. *System of ophthalmology*. Vol. 3. London: Kimpton, 1964;820-5.
- 9) Daicker BC, Perren B. Epibulbar osteoma combined with dermolipoma. *Ophthalmologica* 1977;174:58-60.
- 10) Tsai AS, Lee KY, Al Jajeh I, et al. Epibulbar osseous choristoma: a report of two cases. *Orbit* 2008;27:231-3.
- 11) Bicer T, Soylemez H. Epibulbar osseous choristoma. *Case Rep Ophthalmol Med* 2014;2014:292619.
- 12) Ponnudurai T, Louisraj S, Salman A. Epibulbar osseous chori-

stoma: a case report. Int Med Case Rep J 2017;10:337-9.
13) Aldossary MM, Alkatan HM, Maktabi AM. Epibulbar complex and osseous choristoma: clinicopathological study with interesting associations. Ann Med Surg (Lond) 2018;36:135-41.

14) Qin V, Verdijk RM, Paridaens D. Epibulbar osseous choristoma: a photo essay case report. Int Ophthalmol 2019;39:1137-9.
15) Harkins KA, Perry D, Suh DW. Epibulbar osseous choristoma: a case report. Am J Ophthalmol Case Rep 2016;5:4-6.

= 국문초록 =

안구바깥 골성 분리종 2례

목적: 안구바깥 골성 분리종 2례를 보고하고 이에 대한 문헌 고찰을 하고자 한다.

증례요약: 26세 남자와 50세 여자가 특별한 증상 없이 우연히 발견된 결막하 종괴를 주소로 전원되었다. 외상력이나 전신적 감염, 특이 병력은 없었다. 종괴는 각각 상이측과 하이측 결막 아래에 위치하였고, 종괴에 대한 절제술을 시행하였다. Hematoxyline and eosin 염색을 이용한 병리조직검사상 성숙된 골조직이 확인되어 안구바깥 골성 분리종으로 진단되었다. 술 후 재발이나 합병증은 보이지 않았다.

결론: 안구바깥 골성 분리종은 드문 질환이지만 어떤 연령과 성별의 환자에서도 진단될 수 있다. 따라서 무증상의 결막 아래 혹은 안구바깥의 종괴가 특히 이측에 발견될 경우 안구바깥 골성 분리종을 염두에 두어야 하겠다.

<대한안과학회지 2020;61(10):1212-1215>

김주미 / Ju Mi Kim

충남대학교 의과대학 안과학교실
Department of Ophthalmology, Chungnam
National University College of Medicine

