

## 중이강에 발생한 타액선 분리종 - 증례보고 -

계명대학교 의과대학 이비인후과, 병리학교실\*  
김중훈 · 김일태 · 박관규\*

### Salivary Gland Choristoma of the Middle Ear - A Report of One Case -

Jong Hoon Kim, M.D., Il Tae Kim, M.D., Kwan Kyu Park, M.D.\*

*Department of Otolaryngology, and Pathology,\*  
Keimyung University School of Medicine*

#### = Abstract =

Choristoma is defined a mass of tissue histologically normal for an organ or part of the body other than the site which it is located. Especially, salivary gland choristoma of the middle ear is defined, salivary gland tissue is located at middle ear cavity. Normal salivary gland tissue occurring as a tumor in the middle ear is a rare entity. It is associated with developmental anomalies of the facial nerve and ossicular chain.

In 1961 Taylor and Martin described the first salivary gland choristoma of the middle ear in a patient with a history of a unilateral conductive hearing loss since birth. Since this initial description, there have been a dozen of subsequent reports of salivary gland choristoma within the middle ear but this kind of report has never been reported in our country.

The authors recently experienced a case of salivary gland choristoma of the middle ear associated with anomalies of the facial nerve and ossicular chain in 17 year old female patient with unilateral conductive hearing loss since birth and report this case with review of the literatures.

KEY WORDS: Salivary Gland Choristoma · Ossicular Chain and Facial Nerve Anomalies.

#### 서 론

분리종(choristoma)이란 기관 또는 신체의 일부가 조직학적으로는 정상조직이지만 있어야 할 위치 이외의 장소에 존재하고 있는 조직의 응집된 종괴로 정의한다. 타액선 분리종이라함은 타액선이 정상 위치가 아닌 곳에 위

치하는 것이며, 따라서 중이강 타액선 분리종(salivary gland choristoma)은 정상 타액선조직이 중이강내에 존재하는 경우를 말하며 다양한 전음성난청의 소견과 함께 중이강내 다른 선천성 이상을 동반한다<sup>4,5)</sup>.

중이강내 타액선 분리종은 1961년 Taylor와 Martin<sup>9)</sup>이 고도의 전음성난청을 가진 환자에

서 처음 기술한 이래 세계적으로 10여 증례가 보고되어 있으나 저자들이 조사한 바로는 국내에서는 아직까지 보고된 적이 없다. 저자들은 좌측 청력장애를 주소로 내원한 17세 여자에서 시험적 고실개방술을 시행하여 이소골 및 안면신경주행경로 이상을 동반한 중이강 타액선 분리종 1례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

환 자 : 이 ○ 경, 17세, 여자.

초 진 : 1992년 7월 16일.

주 소 : 1년전 우연히 발견한 좌측 청력장애.

가 족 력 : 특기 사항 없음.

과거력 및 현병력 : 환자는 외상이나 약물복용 등 과거력상 특기할 병력은 없었으며, 이루나 이통 등 청력장애를 일으킬 만한 증상 역시 없었고 전신발육 및 영양상태는 양호하였다. 본인은 좌측귀의 청력장애를 모르고 지내왔으나 1년전 학교 친구에 의해서 환자의 우측에서 대화시에는 잘 들으나, 좌측에서 대화할 경우 잘 듣지 못한다는 사실을 처음 발견하여 개인의원을 방문한 결과 좌측귀의 전음성난청으로 진단받았다.

이학적검사 : 이경검사상 우측고막은 정상소견이었으나 좌측고막은 후상부에 불규칙한 모양의 분홍색 음영이 관찰되었던 소견을 제외하고는 신체 타부위에 특기할 만한 이학적 이상소견은 없었다.

청력검사 : 청력검사는 GSI 10 청력계기로 측정하였으며, 순음청력검사상 회화음역의 기도와 골도의 평균청력역치는 우측 17/5dB, 좌측 65/18dB였으며 어음청력역치검사 및 어음명료도검사서 우측 20dB/100%, 좌측 70dB/100%였다. 임피던스청력검사(GSI 1723 Middle Ear Analyzer)에서 양측은 A형의 고실도를 보였다.

방사선검사 : 측두골 전산화단층촬영상에서 좌측 중고실에 위치한 비정상적인 방사선 비투

과성의 음영이 난원창을 폐쇄시키는 양상을 보이며 그 전내방에 비정상적인 연조직의 음영이 관찰되었다(Fig 1).



Fig 1. Temporal bone CT showing abnormal soft tissue mass just medial and anterior portion of the abnormal bony mass in the mesotympanum.

수술소견 : 전술한 병력과 검사소견을 종합하여 좌측귀의 이소골 기형으로 인한 전음성난청의 진단하에 1992년 8월 30일 국소마취하에 좌측 시험적 고실개방술을 시행하였다. 이내 경유법으로 고실을 개방하니 고삭신경은 발견할 수 없었고 중이강내의 정원창소와 부위에 국한된 소량의 투명한 야교와 같은 점액성 액체의 저류가 관찰되었고, 안면신경의 수평분절 부위에 매달려 있는 연조직을 확인하고 절제한 후 0.2mA 강도로한 전기신경자극기(Hilger nerve stimulator)로 안면신경의 수평분절부위를 자극한 결과 안면표정근의 연축을 볼 수 있어 하방으로 전위된 안면신경 주행경로의 이상을 확인할 수 있었으며, 중고실 후방의 불규칙한 골조직을 자극시에도 안면표정근의 연축이 있었다(Fig 2). 중고실의 후방에 불규칙한 모양의 골조직이 관찰되었으나 이소골(추골 및 등골)은 확인할 수 없었을 뿐만 아니라 안면신경주행경로의 이상으로 난원창을 확인할 수 없어 더 이상의 수술적 조작이 불가능하여 수술을 종료하였다. 환자는 술후 2일째 퇴원하였으며 청력개선은 없었다. 중이강내에서 절제한 연조직은 병리조직학적으로 장액선 및 점액선이 혼재된 정상 타액선조직의 작은 종괴임이 판명되었다(Fig 3).

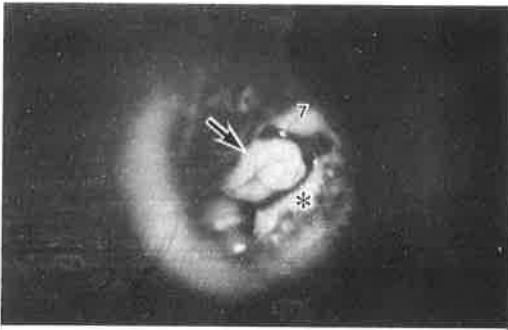


Fig 2. Operative photograph showing the tumor mass(Arrow) and its relationship to the facial nerve(7) and abnormal bony mass (\*) in the middle ear cavity.

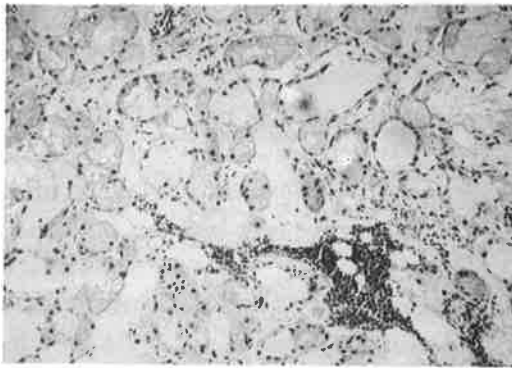


Fig 3. Microscopic examination of middle ear mass demonstrating normal salivary gland (H & E, X100).

## 고 찰

분리종(choristoma)은 비정상적인 위치에 존재하는 조직학적으로 정상세포 혹은 정상조직을 말하며, 일반적으로 이소성조직의 응집된 종괴를 형성하는 것으로서 위장관 벽에서 발견되는 췌장조직의 잔존(rest)이나 신장, 폐장, 난소 등에 존재하는 부신세포들의 작은 종괴가 여기에 해당된다. 따라서 중이강 타액선 분리종이란 중이강내에 정상 타액선조직이 존재하는 경우라 정의할 수 있다<sup>4)</sup>. 중이강내 타액선 분리종은 1961년 Taylor와 Martin<sup>9)</sup>이 출생할 때부터 고도의 일측성 전음성난청인 환자에서 처음으로 보고한 이래 현재까지 10여 증례가

보고되어 있다. Kartush 등<sup>5)</sup>에 따르면 연령 및 성별 분포는 6세에서 52세까지 다양한 분포를 보여주며 1:2정도로 여자에서 호발한다고 한다.

본 질환의 발생기전은 아직까지 잘 알려져 있지 않으나 기관 형성중에 파잉기관이 정상아닌 위치에서 비정상적인 분화로 인하여 형성되거나, 여분의 조직이 원격전이되어 생길 수 있을 것으로 추정하고 있다<sup>10)</sup>.

중이강내 타액선 분리종의 육안적 소견은 엽상의 단단한 조직이며 크기는 5mm에서 중이강을 채울 수 있을 정도로 다양하고 광학현미경적 소견은 장액성 및 점액성의 소포가 무질서하게 배열되거나 엽상에 가까운 배열을 보이나 정상 타액선 조직과 동일하다<sup>1)</sup>. 호발부위는 안면신경의 수평분절의 골결손 부위가 가장 많으며<sup>1,8)</sup> 드물게는 중이강과 침골사이<sup>3)</sup> 그리고 전고실에 존재하는 경우<sup>7)</sup>도 보고되어 있다. 저자들의 증례에서도 안면신경관이 결손된 비정상적으로 주행하는 수평분절의 안면신경에서 유래한 것으로 전술한 호발부위와 동일하였다. 본 질환에서 흔히 동반되는 중이강내의 이상으로는 대부분에서 이소골기형과 안면신경의 비정상적인 주행경로를 보고하고 있으며 특히 안면신경관 골결손을 가장 많이 동반한다고 하며<sup>5)</sup> 저자들의 증례에서도 이소골기형과 안면신경의 이상소견을 동반하였다.

본 질환의 환자가 병원을 찾는 주된 이유는 전음성난청 때문이며 드물게는 동반될 수 있는 선천성이상인 안면발육부전증<sup>2)</sup>, 이개기형이나 이개상부종물 등<sup>5)</sup>을 주소로 내원하는 경우도 있다. 본 증례 역시 1년전에 친구에 의해 발견된 일측성 난청을 주소로 내원하였으나 자세한 병력청취에서 출생할 때부터 동반된 것으로 판명되었으며 동반된 외적기형은 없었다. 본 질환의 확진 및 청력개선을 위해 시험적 고실개방술을 시행하고 동반된 이소골기형과 안면신경의 병변 정도에 따라 청력개선을 위한 이소골재건술을 시행할 수 있다. 청력개선을 위한 이소골재건술은 환자 개개인의 동반된 중이병변 상태에 따라 결정되어 진다. Kartush 등<sup>5)</sup>에 따르면 이소골기형을 동반한 중이강 타액선

분리종 12례중 3례에서 이소골재건술을 시행하여 2례에서 청력의 개선이 관찰되었다고 보고하고 있으나 Mischke 등<sup>6)</sup>은 분리종의 제거가 어려울 경우 무리한 제거는 피하고 단지 조직학적 진단만을 권하기도 한다. 저자들의 경우에는 비정상적인 안면신경주행경로와 중고실 후방에 위치한 골조직의 자극시에도 안면표정근의 연축이 나타나서 이소골과 난원창의 확인이 곤란하여 청력개선을 위한 수술적 조작은 불가능하였다. 중이강내 타액선 분리종은 그 성장이 매우 느리며 악성전이의 보고는 없지만 현재까지 보고된 예중 1례에서 중이강내 혼합종이 보고되어 있다<sup>5)</sup>.

## 요 약

저자들은 특별한 과거력없이 일측성 전음성 난청을 주소로 내원한 17세 여자 환자에게 시험적 고실개방술을 시행하여 이소골기형과 안면신경기형을 동반한 중이강내 타액선 분리종을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## Reference

1. Batsakis JG : Pathology consultation : Adenomatous tumors of the middle ear. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 98 : 747~752, 1989.
2. Bruner RC, Calif SR : Salivary gland choristoma of the middle ear : A case report. *Arch otolaryngol* 91 : 303, 1970.
3. Caplinger CG, Hora JF : Middle ear choristoma with absent oval window : A report of one case. *Arch Otolaryngol* 85 : 365~366, 1967.
4. Cotran RS, Kumar V, Robbins SL : Robbins pathologic basis of disease. 4th Ed. Philadelphia, WB Saunders Co, 1989.
5. Kartush JM, Graham MD : Salivary gland choristoma of the middle ear : A case report and review of the literature. *Laryngoscope* 94 : 228~230, 1984.
6. Mischke RE, Brackmann DE, Gruskin P : Salivary gland choristoma of the middle ear. *Arch Otolaryngol* 103 : 432~434, 1977.
7. Person DL, Schuknecht HF : Congenital cholesteatoma with other anomalies. *Arch Otolaryngol* 101 : 498~505, 1975.
8. Saeger KL, Gruskin P, Carberry JN : Salivary gland choristoma of the middle ear. *Arch Pathol Lab Med* 106 : 39~40, 1982.
9. Taylor GD, Martin HF : Salivary gland tissue in the middle ear. *Arch Otolaryngol* 73 : 651~653, 1961.
10. Willis RA : The Borderland of Embryology and Pathology. 1st Ed. Butterworth and Co, London, Publishers, 1958.