

거대 콜레스테롤 육아종성 낭종 치험 1례

서울 적십자 병원 이비인후과
하정환 · 김동준 · 박지홍 · 정영준

=Abstract=

A Case of Huge Cholesterol Granuloma Cyst in Temporal Bone

Jung Hwan Ha, M.D., Dong Joon Kim, M.D.,
Ji Hong Park, M.D., Young Joon Jeong, M.D.
Department of Otolaryngology, Seoul Red Cross Hospital

Cholesterol granuloma is thought to be the result of the blocked ventilation of the mastoid air cells. And then mucosal hemorrhage and blood extravasation are followed. Catabolism and foreign body reaction leads to cholesterol granuloma and cholesterol granuloma cyst formation. They are commonly formed in any portion of the air cells in temporal bone and middle ear. However, the huge cholesterol granuloma cyst has been rarely reported. We experienced a case of huge cholesterol granuloma cyst that is associated with the protrusion to external auditory canal and the adhesion with sigmoid sinus wall in 36-year-old male, and report this case with review of literatures.

KEY WORDS : Huge cholesterol granuloma cyst

서 론

거대 콜레스테롤 육아종성 낭종은 드문 질환으로, 주로 중이염 수술후 남아 있는 유양동의 공포(air cell)에서 발생한다¹⁾. 개방동에서는 뇌헤르니아(Brain hernia)와 비슷하며, 폐쇄동에서는 유양동과 중이강을 채우거나 후이부 종창을 보인다. 유양동에 발생한 콜레스테롤 육아종성 낭종중 수술한 과거력이 있는 경우는 국외에서 Palva 등, George 등이 보고한 바 있고 국내에서도 보고된 적이 있으나, 수술한 과거력 없이 콜레스테롤 육아종성 낭종이 발생한 보고는 최근 김 등²⁾과 김 등³⁾외에는 상당히 드물다. 최

근 저자들도 36세의 남자 환자로 수술한 과거력 없이 유양동 내에서 발생하였고, 3~4 cm정도로 상당히 큰 크기였으며, 유양동 밖으로 유양동피질(mastoid cortex)을 미란 시키고 S상동 쪽으로 골용해(osteolysis)를 동반한 낭종을 경험하였고, 조직검사상 콜레스테롤 육아종성 낭종으로 확진된 치험 1례를 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 박 ○ 홍, 36세, 남자
주 소 : 양측 이루와 청력감소

과거력 : 특이한 과거력 없음, 특히 수술한 과거력 없음

현병력 : 수 년전부터 지속되는 이루와 청력장애로 일반적인 만성 중이염으로 알고 치료를 위해 본원에 내원하였다.

국소 소견 : 양측 고막에 중증도의 중심성 천공이 있었고, 양측 모두 이르는 없었으며, 좌측은 외이도 후벽골부가 조금 돌출 되어 외이도 골부가 약간 좁아져 있는 상태 외에는 별다른 소견은 없었다.

측두골 방사선 소견 : 좌측 유양돌기강내를 가득 메우고 있는 연성조직 음영은 유돌동구(aditus ad antrum)에서, 뒤쪽으로는 S상동 쪽으로 골용해를 동반하면서 침범하여 S상동으로의 침범이 의심되었고, 바깥쪽으로는 유양동피질을 미란시켜서 피하조직까지 접해 있었으며, 앞쪽으로는 외이도 후벽골부를 약간 앞쪽으로 돌출시키고 있었다. 상고실(epitympanum)의 이소골 주위에는 연조직 음영으로 가득 차있었고, 추골과 침골은 약간 미란 되면서 외측전이(lateralization)를 보였다. 또, 안면신경과 세반고리관으로의 침범은 사진상 관찰되지 않았다.

청력검사 소견 : 순음청력검사항 우측 기도청력은 44dB, 골도 청력은 10dB이었고, 좌측 기도청력은 50dB, 골도 청력은 13dB의 소견을 보였다.

수술 소견 및 경과: 전신 마취 하에서 외이도에 Köner flap을 만들기 위해 위쪽 12시방향으로 절개를 하는 도중 외이도 후상벽에서 낭종의 외벽이 노출되었다. 다시 후이개 피부절개후 외이도 후벽상부의 flap을 거상할 때 유양동피질을 미란 지키고 노출된 약 1 cm의 낭종의 외벽이 피하조직과 유착되어 있었다. 골부 외이도 후벽이 낭종에 밀려서 앞쪽으로 조금 돌출 되어 있었다(Fig.1). 유착부위를 제거후, 흡인시 낭종 안에는 초코렛 색깔의 장액성 용액으로 차 있었다. 낭종은 유양동 전체에 걸쳐 상당히 크게 위치하였다. 위쪽으로는 유돌동(antrum)에서부터 아래쪽은 유양돌기까지 이르렀으며, 앞쪽은 위에서 언급한 바와 같이 유양동 밖으로 유양동피질(mastoid cortex)을 미란 시키고, 뒤쪽으로는 약 7 mm정도의 골용해로 S상동(sigmoid sinus)과 심한 유착을 보였다. 따라서 S상동과의 유착부위 제거시 약간의 출혈이 있었으며, 이는 surgicel로 해결할 수 있었다. 또

유양돌기 쪽은 낭종 밖으로 노란 색의 연조직과 일부 파사된 조직들이 차있었다. 한편 이소골은 추골과 침골이 모두 외측으로 전이되어 있었고, 추골의 handle과 침골의 long process는 미란(erosion)되어 있었으며, 주위에는 육아종으로 가득 둘러싸여 있었다. 모든 병적 조직을 완전히 제거한 후, 외이도 후벽을 낮추어 개방동을 만들고, 추골과 침골을 제거하였으며, 등골 위에 연골 조각(catilage block)을 얹고 채취한 측두근막으로 고실성형술을 한후 inferior based flap과 choncal cartilage로 유양동을 폐쇄(obliteration)하고, 외이도 성형술(meatoplasty)을 시행하였다. 술후 8일간의 입원 치료후 퇴원하여 현재 외래 통원 치료 중이다.

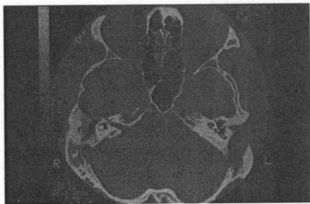


Fig. 1 Axial view of temporal bone computed tomography shows soft tissue density mass occupying left mastoid cavity with the protrusion to external auditory canal and the adhesion with the sigmoid sinus wall.

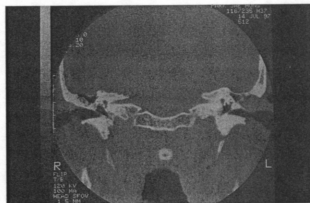


Fig. 2 Coronal view of the temporal bone computed tomography shows soft tissue density mass over external auditory canal with the protrusion.

조직학적 소견 : 유양돌기 주위의 연조직에서는 다수의 cholesterol 결정을 관찰할 수 있었고, 그 주변에서 hemosiderin을 탐식한 대식세포들이 관찰되어 과거의 출혈을 의심할 수 있었다(Fig. 5). 낭의 배열 세포들은 평편한 상피세포 한 층으로 되어있었으며 cytokeratin staining상 염색되는 것을 관찰할 수 있었으나 분비세포는 관찰할 수 없었다(Fig. 6).

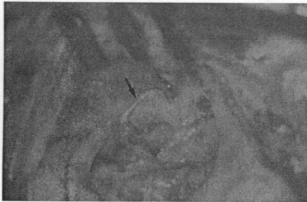


Fig. 3 During elevation of the canal skin, external canal wall was destructed by protrusion of cholesterol granuloma cyst(arrow).

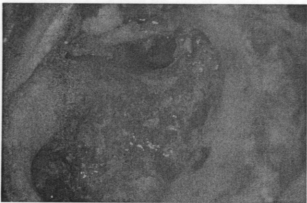


Fig. 4 During mastoidectomy, almost cholesterol granuloma cyst was removed except the portion of mastoid tip.

고 찰

콜레스테롤 육아종은 1894년 Manasse에 의해 처음으로 중이 내에서 거대세포에 둘러싸여 있는 콜레스테롤 결정체가 보고된 적이 있다⁴⁾. 1918년에는

Wittmaack에 의해, 1933년에는 Singer에 의해, 1929년에는 Shambaugh에 의해 출혈로 인한 콜레스테롤 육아종의 형성, 조직 소견, 및 기전에 대해 보고되면서 관심을 끌었다. 그 후 많은 연구들로부터 콜레스테롤 육아종은 측두골 유양봉소에서 염증성 삼출액의 조직화에 의해 발생된다고 하였다. 콜레스테롤 육아종은 만성적인 귀질환 환자에서 흔히 볼 수 있으나, 만성중이염 없이도 중이강이나 유양동, 외이도 등에서 육아종의 형태로 관찰되는 경우가 있으며 부비동이나 안구에서도 발생한 예가 보고되고 있다.

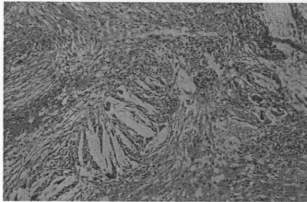


Fig. 5 There are many cholesterol defts, macrophages with hemosiderin(H&E staining).

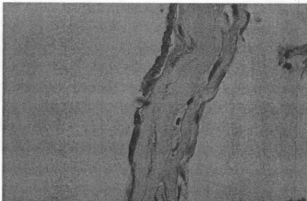


Fig. 6 One layer of the squamous epithelium was presented in cyst wall(cytokeratin staining).

콜레스테롤 육아종의 발생에는 부적절한 환기, 배출장애 및 출혈 등이 중요한 역할을 하는 것으로 알려져 있다⁵⁾. 중이 진주종이 유양동의 환기체계를 억제한 경우나 장기간의 이관 폐색 또는 중이 점막이나 함기세포 점막의 부종 등과 같이 어떠한 형태론적

중이나 유돌봉소의 환기가 이루어지지 않게 되면 음압이 형성되고 이로 인해 혈액의 삼출현상이 일어나며 파괴된 혈관을 통해 조직 내에 혈액이 고여 점막 부종이 생기게 된다. 또한 섬모상피세포의 기능이 감소함에 따라 출혈성 물질의 정체현상이 심해지고 이러한 삼출혈액의 이화작용으로 콜레스테롤, hemosiderin, lipid와 fibrin 등 분해산물이 생기게 된다. 이 때 생긴 분해산물, 특히 콜레스테롤에 대한 이물반응으로 일어나는 거대세포 형성 및 섬유조직과 혈관증식에 의하여 콜레스테롤 육아종 및 육아종성 낭종이 형성된다. 또한 병적 혈관들의 지속적인 재출혈과 국소조직의 지속적인 괴사가 이미 형성된 콜레스테롤 육아종 및 육아종성 낭종을 거대화시킨다¹¹⁰⁾. 그 외 측두골 골절 등도 콜레스테롤 육아종의 발생원인이 될 수 있다⁷⁾. 본 환자의 경우에서는 중이염 등의 이유로 먼저 유돌동구 부위에 콜레스테롤 육아종이 발생하게 되고 이로 인해 유양동의 환기체계도 억제되어 유양동내에 거대한 콜레스테롤 육아종성 낭종이 발생하였을 것으로 사료된다.

콜레스테롤 육아종성 낭종은 연령과 성별에 관계없이 생길 수 있으며, 중이나 유돌봉소 어디에서나 발생할 수 있으나 대개 그 크기가 크지 않으며 거대한 콜레스테롤 육아종 및 콜레스테롤 육아종성 낭종은 그리 흔하지 않은 것으로 알려져 있으며¹⁰⁾, 측두골의 광범위한 파괴를 동반하는 거대한 콜레스테롤 육아종 및 콜레스테롤 육아종성 낭종은 드문 것으로 보고되고 있다⁹⁾.

일부 환자에서 특히 추체첨부에 발생한 콜레스테롤 육아종성 낭종을 가진 환자들은 이과절환 과거력이 없는 경우도 많은 것으로 알려져 있다¹⁾. 증상이나 증후는 콜레스테롤 육아종성 낭종이 발생한 해부학적 위치에 따라 다를 수 있으나⁸⁾ 가장 흔한 증상으로는 청력장애를 들 수 있고 그 외 이명, 이통 및 두통, 어지러움, 뇌신경 미비증상¹¹⁸⁾ 등을 들 수 있다. 청력장애의 양상은 중이 내에 발생한 경우에는 청력검사상 전음성 난청 소견을 보이지만 추체첨부에 발생한 경우에는 정상 또는 감음신경성 난청의 소견을 보인다⁸⁾.

방사선검사로는 단순촬영, 전산화단층촬영 및 자기공명영상 등을 시행할 수 있는데 전산화단층촬영과

자기공명영상 두 가지만으로도 적절한 진단과 치료 원칙을 세울 수 있는 것으로 알려져 있다⁸⁾. 콜레스테롤 육아종성 낭종은 전산화단층촬영상에서 뇌조직과 같은 음영을 보이는 조영증강이 안되는 무혈관의 연조직 종괴로 나타나며⁸⁾, 이에 반해 진주종이나 점액 낭종은 뇌조직보다 저음영의 병변을 보여 어느 정도 감별이 가능하다. 또한 자기공명영상에서 콜레스테롤 육아종성 낭종, 진주종, 점액낭종은 T1-weighted 그리고 T2-weighted image상에서 특징적 음영(signal intensity)의 차이를 나타냄으로 어느 정도는 구별이 가능하나¹⁾, 본 예에서는 술전 자기공명영상을 실시하지 못한 것이 아쉬움으로 남는다.

조직학적 소견은, 광학현미경하에서 콜레스테롤 육아종성 낭종은 많은 염증세포 및 거대세포의 침윤, 피 분해산물들과 콜레스테롤 결정체의 존재로 특징 지워진다⁹⁾. 과거 Palva 등은 콜레스테롤 육아종성 낭종의 낭에서 편평상피세포와 선조직을 발견하였다고 하였으나¹⁰⁾, 그 이후에 발표된 많은 논문에 의하면 콜레스테롤 육아종성 낭종의 낭벽은 편평상피세포나 respiratory type의 상피세포없이 섬유성 결체조직으로 이루어져 있다고 보고되고 있다¹⁷⁾⁽⁸⁹⁾. 본 예에서는 Palva의 보고와 흡사히 낭의 배열세포층이 한 층의 평편 상피세포로 되어있었으나 분비세포들은 발견할 수 없었다.

콜레스테롤 육아종성 낭종의 치료는 전혀 증상이 없는 경우에는 추적관찰만을 요하나, 증상이 발생하거나 주위 중요 구조물에 영향을 미칠 정도로 커지게 되면 수술적 처치가 필요한 것으로 보고되고 있다¹¹⁾. 수술적 처치의 기본원칙은 낭종의 배액과 환기체계의 확립에 있으며 낭벽은 완전 절제할 필요가 없는 것으로 알려져 있다¹⁶⁾. 본 환자에서도 낭종의 배액과 환기체계의 확립을 위해 유양돌기삭개술을 시행하였다. 추체첨부에 발생한 경우에는 병소의 위치와 환자의 청력상태에 따라 수술방법이 결정되며, 유양동이나 중이 내에 발생한 경우에는 이관기능이 좋은 경우 유양동이나 중이를 통해 영구적인 누공을 형성해 줄 수 있고 이관기능이 좋지 않을 경우에는 환기관의 삽입이나 유양돌기삭개술 등을 시행할 수 있다¹²⁾.

끝으로 지금까지의 보고에서는 만성중이염에 대한 수술이 큰 요인이 되었으므로 가능한 유양돌기봉소의

완전한 제거는 진주종의 재발을 막고 콜레스테롤 육아종성 낭종의 발생을 막을 수 있는 가장 좋은 방법으로 생각되었으나, 본 예와 같이 수술이 직접적 원인이 되지 않은 경우는 특별한 예방책은 없는 것으로 생각된다.

결 론

최근 저자들은 양측 이루와 청력감소를 주소로 내원한 환자에서 외이도로 돌출되고, S상 정맥과 유착된 거대 콜레스테롤 육아종성 낭종을 경험하였기에 문헌적 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) Isacson JE, Sismanis A : Cholesterol Granuloma Cyst of the Petrous Apex. *Ear Nose & Throat Journal*. 1996 ; 75(7) : 425-429
- 2) 김환재, 윤상민, 최재혁 등 : 두개내로 침범한 거대 콜레스테롤 육아종성 낭종 일례. *한이인지*. 1997 ; 40(9) : 1338-1343
- 3) 김상연, 윤태현 : 외이도 종괴 양상으로 나타난 콜레스테롤 육아종. *임상이비*. 1997 ; 8(1) : 126-129
- 4) Manasse P : Über Granulationsgeschwulste mit Fremdkörpersrisenzellen. *Virchows Arch*. 1894 ; 136 : 245
- 5) Nager GT, Maryland B, Venderveen TS, et al : Cholesterol granuloma involving the temporal bone. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1976 ; 85 : 204-209
- 6) Paparella MM, Lim DJ : Pathogenesis and pathology of the idiopathic blue ear drum. *Arch Otolaryngol*. 1967 ; 85 : 249-258
- 7) 권 준, 김갑용, 박기현 등 : 외이도 협착을 일으킨 콜레스테롤 육아종. *한이인지*. 1988 ; 31(5) : 838-842
- 8) Goldofsky E, Hoffman RA, Holliday RA, et al : Cholesterol cysts of the temporal bone : diagnosis

and treatment. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1991 ; 100 : 181-187

- 9) Heaton RB, Ross JJ, Jochum JM, et al : Cytologic Diagnosis of Cholesterol Granuloma. *Acta Cytologica*. 1993 ; 37(5) : 713-716
- 10) Palva T, Lehto VP, Jognsson LG, et al : Large cholesterol cysts in the mastoid. *Arch Otolaryngol*. 1985 ; 111 : 786-791
- 11) Morrison GAJ, Diles MG : View from Within Radiology in Focus Cholesterol cyst and cholesterol granuloma of the petrous bone. *The Journal of Laryngology and Otology*. 1992 : 106 ; 465-467
- 12) Rosenberg RA, Hammerschlag PE, Cohen NL, et al : Cholesteatoma vs. cholesterol granuloma of the petrous apex. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 1986 ; 94 : 322-327