

사구체 종양으로 오인된 중이내 상피과증식 1예

가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

김민 · 박정미 · 김동훈 · 박시내

A Case of Epithelial Hyperplasia Mimicking Glomus Tumor in the Middle Ear

Min Kim, MD, Jung Mee Park, MD, Dong Hoon Kim, MD and Shi Nae Park, MD, PhD

Department of Otolaryngology-HNS, Seoul St. Mary's Hospital, The Catholic University of Korea, College of Medicine, Seoul, Korea

— ABSTRACT —

Epithelial hyperplasia is a lesion of an abnormal proliferation of epithelial cells. Until now, middle ear epithelial hyperplasia which is mimicking glomus tumor has not been reported yet in the literature. Glomus tumor can be clinically diagnosed as a reddish mass behind normal tympanic membrane and is commonly suspected in a patient suffered by pulsatile tinnitus and conductive hearing loss. We recently experienced a case of middle ear epithelial hyperplasia in a 46-year old woman. Clinical and radiological characteristics of the middle ear mass were identical with those of glomus tympanicum. Pathologic study of the surgical specimen revealed the lesion as an epithelial hyperplasia. Here, we report a rare tumorous condition of the middle ear with the review of literatures. (J Clinical Otolaryngol 2015;26:253-256)

KEY WORDS : Hyperplasia · Epithelial · Glomus · Tympanicum · Middle ear.

서론

상피 과증식이란 조직학적 확진으로 상피세포가 비정상적 증식하는 병변이다.¹⁾ 반면 본 증례를 접한 저자들이 의심한 사구체 종양은 정상 고막 뒤에서 관찰되는 중이내 붉은 종괴로 동정맥문합 주위에 있는 특화된 세포인 사구체(glomus body)와 유사한 혈관 주위종양으로 풍부한 혈관을 포함하여 붉은 양상을 띄기 쉬운 병변 중

이에서 가장 흔한 양성 종양이다.²⁻⁵⁾

저자들은 중이내 발견된 붉은 종괴에 대해 임상적, 영상의학적으로 사구체 종양 의증으로 수술적 치료를 시행하였던 환자에게서 조직학적으로 중이내 상피과증식증이 확진된 흥미로운 증례를 경험하였는데, 이같은 증례가 아직까지 국내,외에 보고된 바 없었기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

46세 여자 환자가 수개월전부터 서서히 진행된 좌측 귀의 청력 저하, 박동성 이명을 주소로 내원하였다. 내원 당시 이통 및 이루, 어지럼증 등의 증상은 호소하지 않았다. 이학적 검사에서 좌측 이내시경 검사 결과 정상 고막 내부의 후하방에서 적색의 종괴가 존재함이 관찰되었고

논문접수일 : 2015년 5월 6일
논문수정일 : 2015년 10월 12일
심사완료일 : 2015년 11월 3일
교신저자 : 박시내, 06591 서울 서초구 반포대로 222
가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (02) 2258-6215 · 전송 : (02) 595-1354
E-mail : snparkmd@catholic.ac.kr



Fig. 1. Otoloscopic finding showed bulging of inferior posterior portion of left tympanic membrane due to the intratympanic reddish mass (arrows).

이 종괴에 의해 고막이 외측으로 팽윤되어 있었다(Fig. 1).

우측 귀는 정상이었으며, 그 외 안면신경마비나 경부 임파절 종대 등의 소견은 관찰되지 않았다. 순음 청력 검사에서 우측 귀는 정상 청력이었고 좌측 귀는 4분법에 의한 기도 청력 60 dBHL, 골도 청력 10 dBHL의 전음성 난청 소견이 관찰되었고, 고막운동성 계측검사서 우측 C type, 좌측 B type 소견 보였다. 측두골전산화단층촬영에서는 좌측 중이강 내 연부조직 음영이 관찰되었고, 좌측 유양골의 함기화는 불완전하였다(Fig. 2A). 측두골 자기공명영상에서는 T1 Gd조영증강 영상에서 고신호 강도를 보이는 종괴가 관찰되어 중이 사구체종을 의심할수 있는 소견이었으며(Fig. 2B) T1, T2에서 중이내 중신호 강도를 보였고 내부는 비교적 균일하였다(Fig. 2C, D).

환자는 임상 양상과 영상의학적 검사를 토대로 중이 내 발생한 사구체 종양을 의심하여 수술적 제거를 계획하였고, 수술 전날 혈관조영술을 시행받았다. 이때 종괴

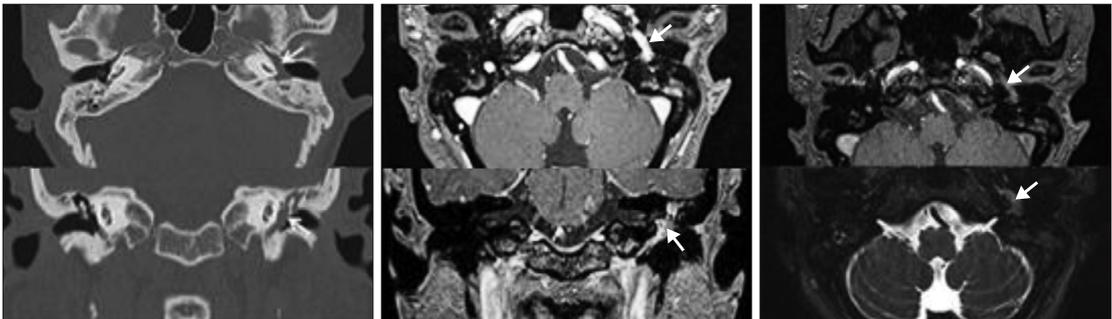


Fig. 2. Computed tomography scans of temporal bone shows soft tissue density fulfilling middle ear cavity (Arrows, Left) and temporal bone MRI of T1-Gd image shows a mass lesion with high signal enhancement (arrowheads, Middle). Temporal MRI of T1 non-enhanced image (triangle, Upper right) and T2 non-enhanced image (triangle, Lower right) are also shown.

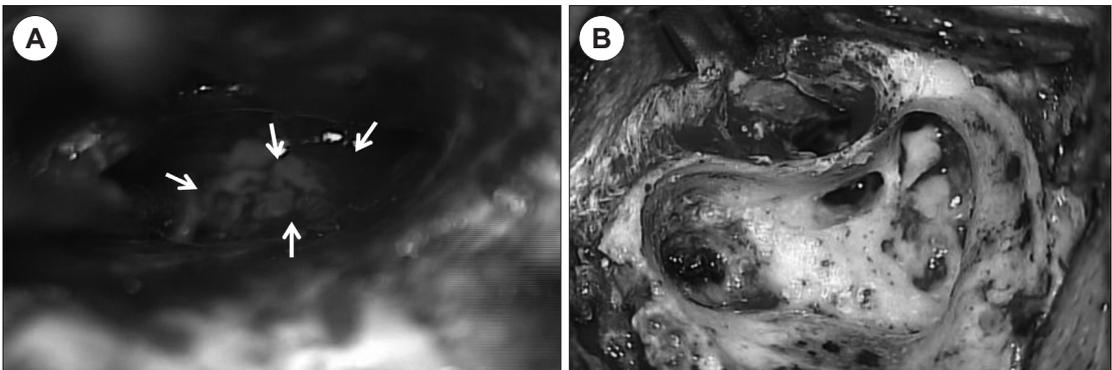


Fig. 3. Surgical findings of the mass which shows well encapsulated mass like lesion in the middle ear (A, arrows). This lesion has been completely excised via canal wall up mastoidectomy with posterior tympanotomy approach (B).

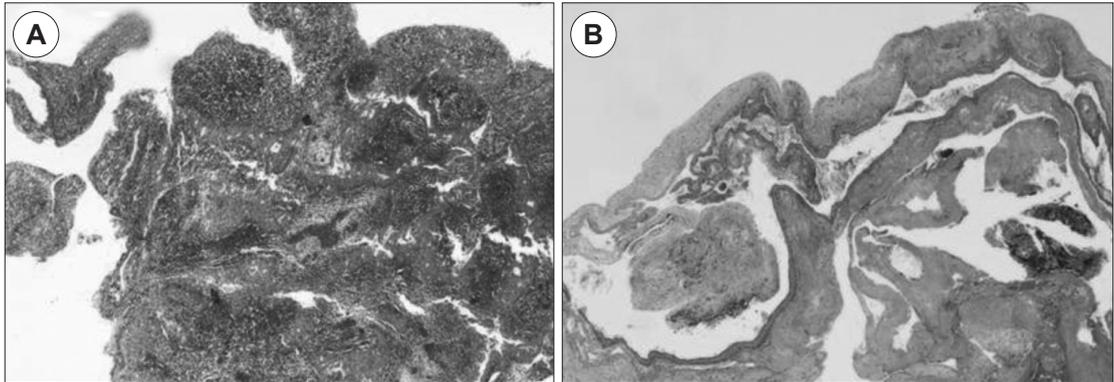


Fig. 4. Hematoxylin-Eosin staining of the mass of different parts shows thickening epithelial layer with inflammatory cell infiltration which reveals the lesion as an epithelial hyperplasia (A, B: x 40, Hemotaxylin-Eosin staining).

로 가는 혈관이 관찰되지 않아 색전술을 시행하지 못하였다. 종괴에 대한 수술적 절제는 전신마취하에서 수술 현미경을 보면서 시행되었다.

후이개절개후 경유양돌기접근법 및 고실개방술을 통한 종양적출술을 시행하였으며 수술시 고막은 천공 없이 선홍색이었으며, 수술당시 중이강 내부는 둥근 적색 종물이 고실 전반을 가득 채우고 있었으며 비교적 경계는 명확하였다(Fig. 3A). 미세기구를 이용하여 종괴를 중이강 내에서 완전히 박리하여 제거하였으며 종괴제거후 이소골은 골파괴 없이 정상소견을 보여 수술을 종료하였다(Fig. 3B).

술후 병리 조직학적 검사에서 술전 병력과 이학적 검사 및 영상학적 검사에서 추정하였던 사구체 종양과는 달리 중이 상피세포의 과증식으로 최종 진단되었다(Fig. 4A, B). 환자는 술 후 박동성 이명이 즉시 소실되었으며, 2개월째 측정된 청력 검사에서 정상 소견을 보였고, 특별한 합병증이나 재발 없이 24개월째 추적 관찰 중이다.

고찰

상피 과증식이란 조직학적 확진으로 상피세포가 비정상적 증식하는 병변이다. 과증식의 정도에 따라서 세가지 즉, 정상 범주(score 1 : epithelial layer is ≤ 4 cells thick), 경증(score 2 : 중등도 상피과증식, epithelial layer is >4 but ≤ 8 cells thick), 중증(score 3 : 중증 상피과증식, epithelial layer is >8 cells thick)으로 구분된다.^{1,5,6} 중이염의 병인은 매우 다양하며 아직 완전히 규명되지 않았지만 가장

큰 병리학적 특징은 중이 점막의 변형과 과형성이다.⁷ 중이내 상피 과증식은 염증 반응에 의해 중이상피조직이 비정상적으로 증식하는 병변이지만 고막 뒤에서 둥글고 붉은 종괴의 양상을 띠고 박동성 이명과 전음성 난청을 동반되어 사구체 종양으로 오인할 만한 예는 아직까지 국내외에 보고된 바가 없었다.

반면, 정상 고막 뒤에서 관찰되는 중이내 붉은 종괴로 흔히 관찰되는 사구체 종양(glomus tumor)은 동정맥문합 주위에 있는 특화된 세포인 사구체(glomus body)와 유사한 혈관 주위종양으로 풍부한 혈관을 포함하여 붉은 양상을 띄기 쉬운 병변으로 전체 두경부 종양의 약 0.6%를 차지하고 고실 사구체종은 중이에서 가장 흔한 양성 종양이다. 사구체 종양의 대부분은 양성이며, 30대에서 40대 사이에 흔하나 가끔 어린 나이에 발생하는 경우도 있다고 보고 되어 있고 악성으로 진단되는 경우도 있다고 알려져 있다.²⁻⁵⁾

남자보다 여자에서 흔히 발생한다. 가족력을 보이는 경우도 있으며 증상으로는 이명이 가장 흔하며, 박동성 이명으로 나타나는 신생물로서 가장 흔한 것은 사구체 종양이다. 2012년 Cho 등에 의한 중이 선종 보고에서 환자는 이명을 호소 하였고, 그 밖에 혈관종, 혈관주위세포종, 형질세포종, 거대세포종, 신경내분비암종 등이 보고된바 있다. 난청, 이충만감, 현훈, 외이도 출혈, 그리고 두통 등의 증상의 순으로 보고 되어 있다. 중이 사구체종은 이학적 검사에서 정상 고막 뒤에 붉은 종괴가 관찰될 때 가장 먼저 의심할 수 있는 질환이다.⁸⁻¹⁰⁾ 영상의학적 검사에서 측두골전산화단층촬영은 고실내 작은 종양 및

종양의 유양돌기로의 파급 정도, 경정맥구와의 관계를 알 수 있는 가장 좋은 진단 방법이며, 측두골 자기공명영상의 Gd조영증강 검사는 혈관이 풍부한 사구체종에서 조영증강이 가장 흔히 관찰되고 큰 사구체종의 경우 조영증강된 종괴내에 혈관이 검은 점처럼 관찰되는 소금과 후추(salt and pepper)양상을 관찰할 수 있어 감별 진단에 용이한 검사법으로 육아종 등의 다른 중이내종괴를 감별하는 데 유용한 것으로 알려져 있다.¹¹⁾

본 증례 환자의 경우 40대 여자 환자로 서서히 진행되는 난청과 함께 박동성 이명을 호소하고 있었고, 정상 고막 뒤의 붉고 둥근 종괴가 관찰되어 전형적인 중이 사구체종의 임상적 양상을 띠고 있었다. 또한 측두골 컴퓨터 단층촬영 결과 중이내 연조직이 관찰되었고 자기공명영상 검사에서 Gd조영 증강이 뚜렷한 종물이 중이내에서 관찰되어 영상학적으로도 사구체종을 일차 의심하는 소견이 있다. 하지만 술전 시행한 혈관조영술에서 종양으로의 공급 혈관(feeding vessel)이 관찰되지 않아 처음으로 사구체종이 아닌 다른 종물의 가능성을 고려할 수 있었고, 수술 후 조직검사를 통해 최종적으로는 상피과증식증으로 확진하게 되었다.

본 증례 환자는 수술 중에 시행한 조직 검사에서 염증 조직과 상피조직 소견이 관찰되었고, 최종 H&E 염색 뿐만 아니라 사구체종을 감별하기 위한 면역조직화학염색에서도 음성 소견을 보여 사구체 종이가 아닌 중이내 상피과증식증으로 확진 되었다.

결과적으로 본 증례 환자가 보인 박동성 이명과 전음성 난청, 이학적 검사에서 관찰된 고막의 후하방에 위치한 붉은 종괴와 이로 인한 고막의 외측 팽윤, 측두골 자기공명영상에서의 T1 Gd 조영 증강 영상에서 고신호 강도의 종괴가 관찰된 양상 등의 중이 사구체종을 의심할 수 있었던 모든 소견이 결국 중이내 상피과증식증으로 인한 염증 소견에서도 동일하게 관찰될 수 있음을 알 수 있

었다. 임상적, 영상학적 검사상 사구체종이 의심되더라도 면역 염색을 포함한 조직검사를 통한 확진이 필요할 것으로 생각되며 이에 저자들은 국내, 외적으로 보고된 바 없었던 중이사구체종으로 오인된 중이내상피과증식증 1례를 문헌고찰과 함께 처음 보고하고자 한다.

중심 단어 : 과증식 · 상피 · 사구체 · 고실 · 중이.

REFERENCES

- 1) Li CW, Shi L, Zhang KK. *Role of p63/p73 in epithelial remodeling and their response to steroid treatment in nasal polyposis. J Allergy Clin Immunol* 2011;127:765-72.
- 2) Weiss SW, Goldblum JR. *Perivascular tumors. In: Enzinger FM, Weiss SW, editors. Soft tissue tumors. 5th ed. China: Mosby;2008. p.751-66.*
- 3) Jackson CG, Leonetti JP, Marz SJ. *Surgery for benign tumors of the temporal bone. Glasscock-Shambaugh surgery of the ear. In: Gulya AJ, Minor LB, PoedS, editors. 6th edition. Shelton: People's medical publishing house;2010. p.729-50.*
- 4) Fabich DR, Hafez GR. *Glomangioma of the trachea. Cancer* 1980;45(9):2337-41.
- 5) Handa U, Palta A, Mohan H, Punia RP. *Aspiration cytology of glomus tumor: a case report. Acta Cytol* 2001;45(6):1073-6.
- 6) Bhat P, Mattarollo SR, Gosmann C, Frzer IH, Leggatt GR. *Regulation of immune responses to HPV infection and during HPV-directed immunotherapy. Immunol Rev* 2011;239(1):85-98.
- 7) Cho CG. *Animal models of otitis media. Korean J otolaryngo-Head Neck Surg* 2015;58(6):371-7.
- 8) O'Leary MJ, Shelton C, Giddings NA, Kwartler J, Brackmann DE. *Glomus tympanicum tumors: a clinical perspective. Laryngoscope* 1991;101(10):1038-43.
- 9) Cho YW, Kim DY, Park HJ. *A case of middle ear adenoma. J Clinical Otolaryngol* 2012;23(1):243-7.
- 10) Woods CI, Strasnick B, Jackson CG. *Surgery for glomus tumors: the Otology Group experience. Laryngoscope* 1993;103(11):65-70.
- 11) Jackson CG. *Basic surgical principles of neurotologic skull base surgery. Laryngoscope* 1993;103(11):29-44.