

경외이도 내시경적 접근법으로 제거한 고실 사구종 1예

계명대학교 의과대학 이비인후과학교실
배기호 · 박준완 · 이예원 · 남성일

Transcanal Endoscopic Removal of a Glomus Tympanicum Tumor

Ki Ho Bae, MD, Jun Wan Park, MD, Ye Won Lee, MD and Sung Il Nam, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology, School of Medicine, Keimyung University, Daegu, Korea

— ABSTRACT —

Glomus tympanicum tumors, are benign tumors of neural crest cell origin. They can spread throughout the mesotympanum, hypotympanum, and mastoid causing symptoms of pulsatile tinnitus, conductive hearing loss. The surgical approach is determined by the extent of tumor involvement in the mesotympanum, hypotympanum, and mastoid. A transcanal or postauricular approach with the operating microscope is the traditional means used to surgically manage middle ear paragangliomas. Transcanal endoscopic ear surgery, an emerging minimally invasive approach that offers superior visualization of the middle ear cleft. We experienced a case of glomus tympanicum tumor in 77 year-old female with several year-history of intermittent pulsatile tinnitus and earfullness which was surgically removed through Transcanal endoscopic approach. (J Clinical Otolaryngol 2017;28:228-233)

KEY WORDS : Glomus tympanicum · Transcanal endoscopic ear surgery.

서 론

측두골을 침범하는 질환은 드물게 발생되며 두개저 병변은 인접한 주요 구조물로 인해 치료하기가 어려울 수 있다. 다행스럽게도 중이 및 유양동을 포함한 대부분의 병변은 양성 질환으로 치료시 필요이상의 넓은 정상 조직을 제거해 심각한 이환율을 초래하는 경우는 거의 없다.

사구종(glomus tumor)은 발생학적으로 신경능(neural crest)으로부터 기원하며, 풍성한 혈관 및 신경이 분포하는 부신경절 조직(paraganlia tissue)에서 발생하는 부신경절종(paraganglioma)으로 인체에서 부신경절 조직이 있는 모든 기관에서 발생 가능하다. 측두골에 발생하는 사구종은 Jacobson씨 신경을 따라 중이강 내에 발생하는 고실 사구종(glomus tympanicum), 경정맥구의 외막에서 발생하는 경정맥 사구종(glomus jugulare), 미주신경 주위의 신경절 조직에서 발생하는 미주신경내 사구종(glomus intravagale) 등으로 나눌 수 있다.¹⁾ 사구종은 두경부가 가장 호발 부위이며 그 중 고실 사구종은 (glomus tympanicum, tympanic paraganglioma)은 중이 내에서 발생하는 가장 흔한 양성종양으로 알려져 있다.²⁾

중이 및 유양동의 병변을 제거시 현미경적 경외이도 또는 후이개 접근법은 전통적인 방법이다. 경외이도 내

논문접수일 : 2017년 9월 20일
논문수정일 : 2017년 10월 27일
심사완료일 : 2017년 11월 23일
교신저자 : 남성일, 41931 대구광역시 중구 달성로 56
계명대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (053) 250-7715 · 전송 : (053) 256-0325
E-mail : entnamsi@dsmc.or.kr

시경 수술(transcanal endoscopic ear surgery, TEES)는 중이 및 유양동의 병소를 다루는데 사용될 수 있는 새로운 치료법이다. 직선 시야를 가지는 기존의 현미경과는 달리 내시경은 더 넓은 시야를 가지고 있다는 장점이 있고 또한 다양한 각도의 내시경이 활용 가능하기 때문에 중이강 내와 같이 사각 지역이 많은 부위에서 시야를 확보하면서 수술을 진행하기 편리하다.^{3,4)} 만성 중이염과 진주종 수술에 이러한 경외이도 내시경적 접근법의 유용성이 국내에서 보고되고 있다.⁵⁾ 중이에 국한된 종양 병변에도 경외이도 내시경적 접근법의 유용함의 근거들이 해외에서 보고되고 있으나⁶⁾ 국내에선 아직 보고가 드물다.^{7,8)} 저자들은 경외이도 내시경적 접근법을 통해 제거한 고실 사구종 1예를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

77세 여자가 내원 3개월 전부터 발생한 좌측 이충만감과 간헐적 박동성 좌측 이명을 주소로 방문하였다. 수년 전부터 양측 청력소실 있었으나 이통, 이루나 이출혈 등의 증상은 없었다. 과거력으로 고혈압 있었고 가족력, 및 사회력상 특이소견 없었다. 이내시경 검사상 좌측 고막의 전방에 치우친 돌출된 적색의 박동성 종괴와 삼출액선이 관찰되었다(Fig. 1A, 동영상 <https://youtu.be/a1tS321ht2c>).

순음 청력검사서 좌측 기도청력 48 dB, 골도청력

36 dB, 우측 기도청력 49 dB, 골도청력 36 dB이며 노인성 난청 소견이었다(Fig. 2). 측두골 컴퓨터 단층 촬영상, 좌측 고실 내 12×12 mm 크기의 아령모양의 균일한 연부조직 음영이 관찰되며, 종괴가 이관을 막고 있는 양상이었으며, 그 외 이소골 및 유양동의 미란 및 골파괴 등의 소견은 관찰되지 않았다(Fig. 3). 자기공명영상은 조영 증강되는 12×12 mm 크기의 결절성 병변이 좌측 고실 내 관찰되어 고실 사구종을 강력히 의심할 수 있었다(Fig. 4).

전신마취 하 경외이도 내시경적 접근법을 통한 시험적 고실절개술을 시행하였다. 수술 현미경 하에서 고막

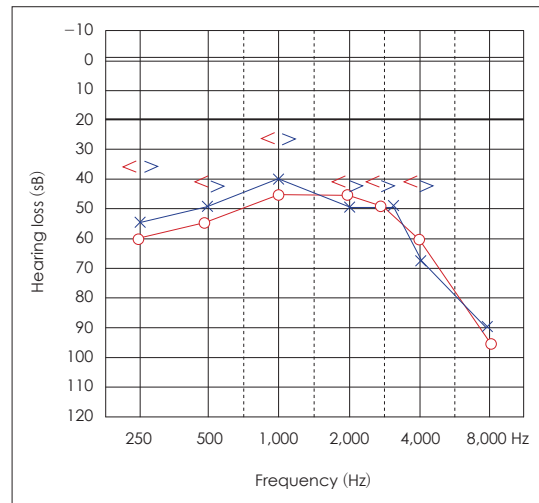


Fig. 2. Pure tone audiometry shows mild sensorineural hearing loss, both.

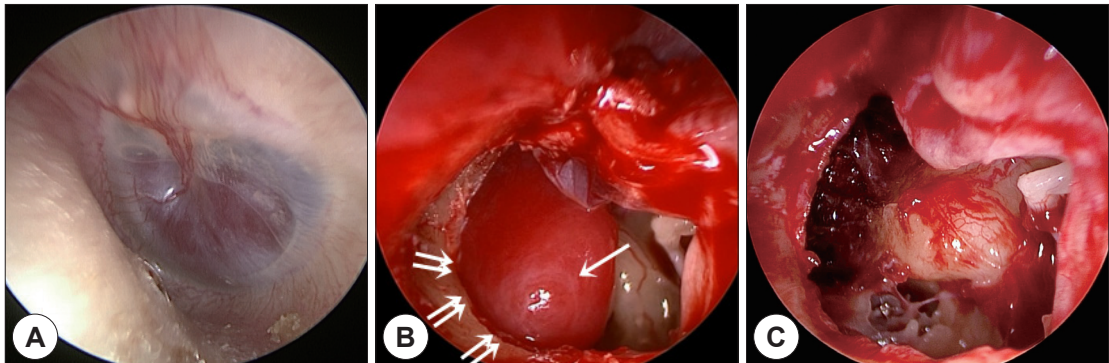


Fig. 1. Endoscopic images of a tympanic glomus. A : Preoperative endoscopic finding shows a reddish pulsatile mass on the anteroinferior quadrant (<https://youtu.be/a1tS321ht2c>). B : Intraoperative endoscopic finding shows a well circumscribed redish mass (arrow) and annulus sulcus which was scooped by curette (double arrow). C : Inspection of the middle ear cavity after the removal of the tumor.

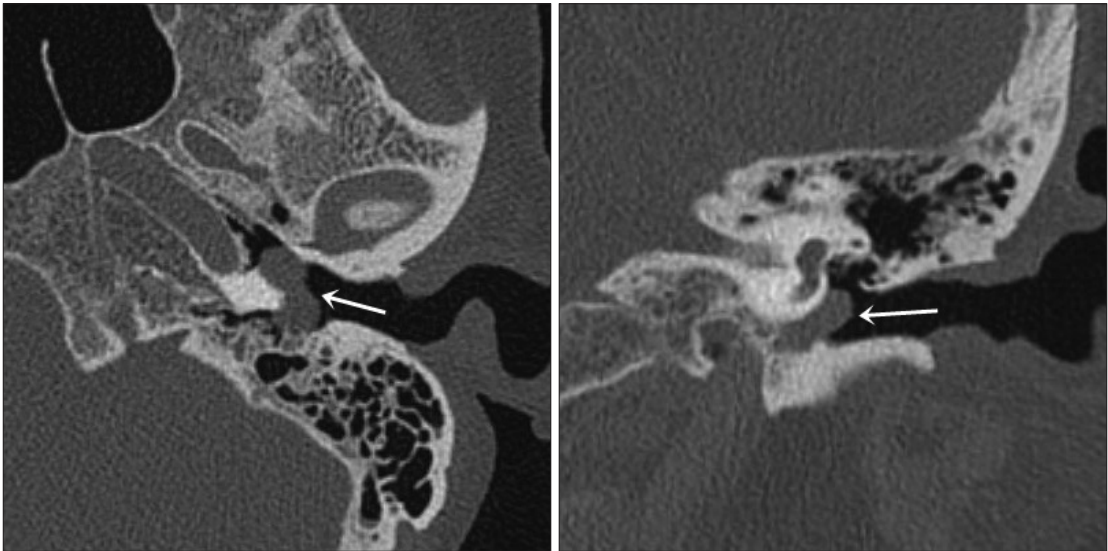


Fig. 3. Preoperative axial and coronal CT scans demonstrates a about 12×12 mm sized, dumbbell shaped, well-demarcated, nodular mass in the mesotympanum and hypotympanum of the middle ear cavity (arrow).

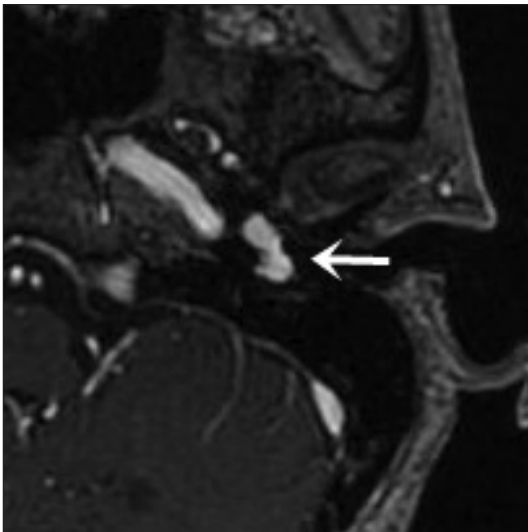


Fig. 4. Gadolinium-enhanced T1-weighted SPGR axial view of temporal bone MRI shows 12×12 mm sized, dumbbell shaped, enhancing, nodular mass in the mesotympanum and hypotympanum of the middle ear cavity (arrow).

은 천공이 없었고, 고막 전후하방에 걸쳐진 적색의 종물이 관찰되었다. 고막 외이도 피판을 들어올리자 중이 내에 혈관으로 둘러싸인 적홍색의 종물이 관찰되었다(Fig. 1B). 중이점막은 정상이었으며, 이소골의 파괴소견은 없

었다. 색전술이 시행되지 않은 상태였으므로 종물 제거 전 출혈을 줄이기 위해 종물 주위에 에피네프린으로 희석된 목화솜을 종괴 주위에 도포하였고 출혈시 양극성 전기소작기(Bipolar Electrocautery)와 써지셀(Surgicel®)을 이용하여 지혈을 시행하였다. 종물이 깨끗이 제거된 것을 재확인하고 수술을 종료하였다(Fig. 1C).

병리 검사에서 H&E 염색상 유상피세포(epitheloid cell)들의 세포 덩어리인 세포구(zellballen)와 주위 지지세포가 작은 혈관조직에 의해 둘러 싸여있는 것이 관찰되고 S-100과 Synaptophysin에 대해 면역조직화학염색을 시행한 결과 갈색의 양성소견 보여 고실 사구종으로 확진 되었다(Fig. 5).

수술 후 청력 변화 없이 박동성 이명과 이충만감 증상은 호전 되었고 수술 후 7개월이 지난 현재까지 재발 없으며 외래 경과 관찰 중이다.

고 찰

고실 사구종은 중이내 갑각 용기(promontory)를 따라 주행하는 Arnold와 Jacobson 신경의 고실 신경총(tympanic plexus)에서 기원하며 서서히 자라는 양성 혈관 종양이다.^{9,21)} Carlson은 115명의 고실 사구종 환자들에서

대다수가 여성(90.4%)에서 발생하고, 진단 당시 평균연령은 55.2세(25.9~79.1세)였고 30대 후반과 60대 초반에 호발하는 이중 분포를 나타낸다고 보고 하였다.¹⁰⁾ 또

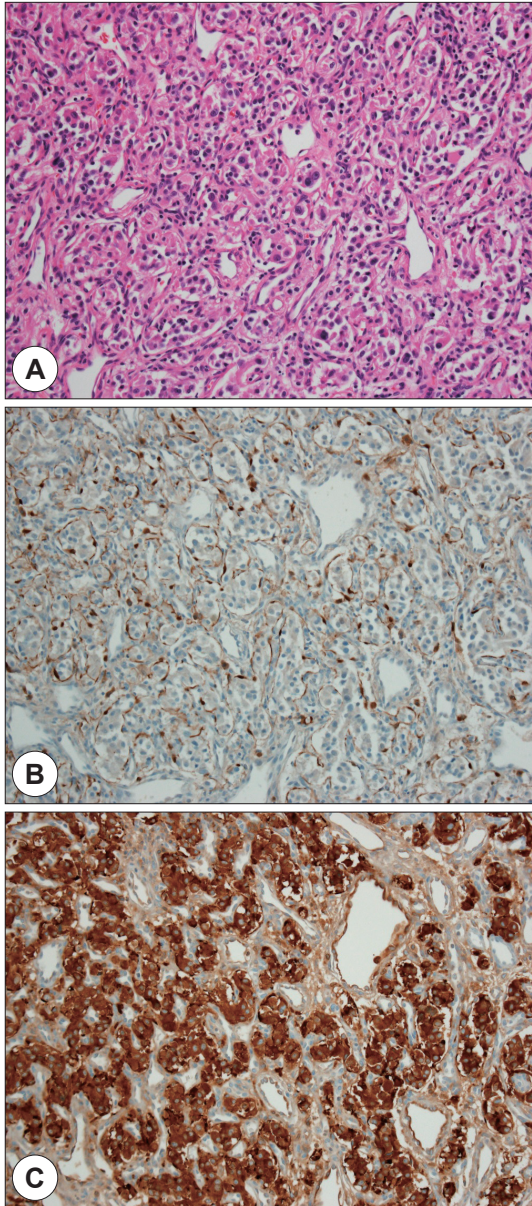


Fig. 5. A : Light microscopic finding shows Zellballen architecture is visible, along with a rich vascular stroma (H&E, original magnification $\times 200$). B : Light microscopic finding of positive reaction to S-100 ($\times 200$). C : Light microscopic finding of positive reaction to synaptophysin ($\times 200$).

한 측두골 내 사구종의 약 5%에서 악성화되는 것으로 보고 되고 있다.¹¹⁾

증상으로는 박동성 이명이 가장 흔하며, 난청, 이충만감, 현훈, 외이도 출혈, 그리고 두통 순으로 자주 동반되는 것으로 되어 있다.¹²⁾ 본 증례에서 환자는 77세 여성으로 평소에 노인성 난청이 있었고 간헐적 박동성 이명과 이충만감의 불편이 상대적으로 적어 병원에 늦게 찾아왔다. 이학적 소견상 종물은 일반적으로 고막의 뒷면 후하부에 적색의 박동성 종물 소견을 보인다. 종물이 고막과 접촉 할 때 공기 압력이 가해지면 가끔 종물 색깔이 핏색(whitening) 지는데 이를 Brown 징후라 한다.¹⁰⁾ 고실사구종의 특징적 소견이다. Carlson은 고실사구종 환자의 55.6%에서 Brown's 징후를 나타냈다고 보고하였다.¹⁰⁾ 고실내 종물의 경우 후하방 돌출은 사구종이나, 경정맥구인 경우가 많고, 후상방 돌출은 안면신경초종, 전방돌출은 경동맥 주행이상에서 나타날 수 있다.¹³⁾ 청력검사 소견은 전음성 난청인 경우가 가장 흔하고, 혼합성 난청이나 감각신경성 난청, 정상청력으로 나타나는 경우도 있다. 순음 청력검사에서 감각 신경성 난청을 보이는 경우 종양이 와우를 침범했을 가능성을 고려하여야 한다.¹⁴⁾

방사선학적 검사로 측두골 전산화단층촬영이 고실내 작은 종양 및 종양의 경정맥구와의 관계를 알 수 있는 가장 좋은 진단 방법이고, 자기공명영상은 종양의 침범 부위 및 주변 신경이나 혈관과의 관계를 파악하고, 종양의 두개내로의 침범여부를 파악하며, 선천성 진주종 및 콜레스테롤 육아종 등의 다른 중이 내 종괴를 감별하는데 유용하다.¹⁵⁾ 혈관조영술은 진단 뿐만 아니라 종양의 크기와 부위, 영양 혈관을 확인 할 수 있고, 다른 부위에 동시에 존재하는 사구종을 알아 볼 수 있으며 대량 출혈 가능성이 있는 경우 수술 전 48시간 이내 색전술을 시행해 수술 중 출혈의 위험을 줄여 좀 더 안전하게 수술을 진행 할 수 있다.¹⁶⁾

종양은 병리조직학적으로 하버스관과 공기세포내에서 성장함으로 측두골내에서 종종 침윤성 성향을 가질 수 있지만 일반적으로 캡슐 고형화 되어 있다. 현미경적으로 주세포(chief cell) 주위로 지지세포(sustentacular cell)가 둘러싸여있는 군집 형태인 세포구(zellballen)가 나타나는 것이 주요한 특징이며, S-100와 synaptophysin

등에 대해 면역 조직화학 염색을 시행하면 확진할 수 있다.¹⁾

이 질환의 치료는 수술이 원칙이며 부득이한 경우에 관찰 및 방사선 치료를 할 수 있다. 현재까지 가장 널리 사용되는 고실 사구종 분류법은 Glasscock-Jackson 분류법으로 침범 위치와 정도에 따라 4가지 type으로 분류하였다. Type I은 사구체 종양이 고실 갑각 용기에 제한된 경우, type II는 종양이 중이강을 완전히 채운 경우, type III은 유양돌기를 침범한 경우, type IV가 종양이 외이도로 확장되었거나, 두개내로 침범이 의심되는 경우이다.¹⁷⁾ 경외이도 현미경적 접근은 흔히 작은 종양(Glasscock-Jackson type I & II)에 선호되는 반면 Glasscock-Jackson type III or IV인 경우는 후이개 접근법을 통한 후고실 개방술을 병행하여 유양동 절제술을 시행하여 종양을 완전히 제거할 수 있다. 하지만 Glasscock-Jackson type I 중에도 작거나 좁은 외이도를 가진 환자, 병변이 후고실인 고실동, 안면신경와(facial recess)를 침범하거나 또는 하고실의 전방 확장이 된 경우는 병변의 완전히 절제를 위해 후이개 접근 및 유양동 절제술이 요구 될 수 있다.

경외이도 내시경적 접근법(transcanal endoscopic ear surgery, TEES)은 현미경보다 더 넓은 시야를 확보할 수 있으며 다양한 각도의 내시경을 교환해 가면서 사각 지역의 병변을 확보할 수 있다.^{18,19)} TEES의 고실 사구종 치료의 장점은 과도한 뼈 제거 없이 전고실, 후고실 하고실까지 침범한 병변을 제거할 수 있어 Glasscock-Jackson type I 치료에서 후이개 절개없이 중물을 제거할 수 있다. 단점은 유양동으로 확장된 병변은 제거할 수 없고, 한 손으로 내시경을 들고 수술을 진행하기 때문에 출혈시 깨끗한 수술 시야를 확보하는 데 한계점이 될 수 있다. 이러한 점을 극복하기 위해 내시경용 도구를 사용하는 것이 도움이 된다. 가령 내시경용 다이섹터 기구에는 흡인이 가능한 구멍이 있어 한 손으로 수술을 할 때에도 출혈 시 충분한 시야 확보가 가능하다. 그리고 작은 양극성 전기소작기, 써지셀(Surgicel[®])을 이용하여 Jacobson 신경 주행을 따라 지혈 하면서 수술하는 것이 좋다. 또한 술 중 저혈압 유지하는 것 과 역트렌델렌버그 자세를 취하는 것 또는 수술 부위에 국소 혈관수축제가 함유된 목화솜을 사용하는 것이 출혈 시 깨끗한

수술 시야 확보에 도움을 준다.²⁰⁾

본 증례에서는 크기가 작은 고실 사구종으로 Glasscock-Jackson 분류상 type I에 해당되어 수술 전 색전술은 시행하지 않았다. 그러나 측두골 컴퓨터촬영상 고실에만 국한되지 않고 하고실 전방까지 침범하여 현미경을 이용한 수술일 경우 후이개 절개가 요구 되어, 이를 피하기 위해 경외이도 내시경적 접근법을 선택하여 종양을 완전 절제하였다. 술 중 출혈량은 50 cc 미만으로 대량 출혈은 없었다.

내시경의 선명한 시야를 통해 보여지는 작은 크기의 고실 사구종인 경우 내시경용 흡입 다이섹터의 사용과 영양공급 혈관의 양극성 전기소작 및 써지셀(Surgicel[®])과 혈관수축제가 함유된 목화솜을 이용하여 지혈하면 경외이도 내시경적 방법을 통해 좋은 결과를 얻을 수 있을 것이다.

중심 단어 : 고실 사구종 · 경외이도 내시경적 접근법.

REFERENCES

- 1) Gulya AJ. *The glomus tumor and its biology. Laryngoscope* 1993;103(Suppl 60):7-15.
- 2) Linggen MW, Kumar V. *Head and neck. in: Kumar V, Abbas AK, Fausto N, editors. Robbins and Cotran pathologic basis of disease. 7th edition. Philadelphia: Elsevier Saunders;2004. p.773-96.*
- 3) Tarabichi M, Nogueira JF, Marchioni D, Presutti L, Pothier DD. *Transcanal endoscopic management of cholesteatoma. Otolaryngol Clin North Am* 2013;46(2):107-30.
- 4) Bennett ML, Zhang D, Labadie RF, Noble JH. *Comparison of middle ear visualization with endoscopy and microscopy. Otol Neurotol* 2016;37(4):362-6.
- 5) Choi JE, Kim HJ, Kim BK, Moon IJ. *Minimally invasive transcanal removal of attic cholesteatoma. Korean J Otolaryngol* 2017;60(4):158-63.
- 6) Marchioni D, Alicandri-Ciuffelli M, Gioacchini FM, Bonali M, Presutti L. *Transcanal endoscopic treatment of benign middle ear neoplasms. Eur Arch Otorhinolaryngol* 2013; 270(12):2997-3004.
- 7) Kim CS, Kim JY, Shin KC, Kim HK, Hwang SJ, Ahn KH. *Glomus tumor of the middle ear. Korean J Otolaryngol* 1983;26:118-24.
- 8) Kim HN, Lee WS, Yim SB, Kim DU, Uoon BM, Park CI. *A case of glomus tumor treated by the infratemporal fossa approach. Korean J Otolaryngol* 1986;29:874-81.
- 9) Weissmann JL, Hirsch BE. *Beyond the promontory: the multifocal origin of glomus tympanicum tumors. Am J Neuroradiol* 1998;19(1):119-22.
- 10) Carlson ML, Sweeney AD, Pelosi S, Wanna GB, Glasscock

- ME, Haynes DSI. *Glomus tympanicum: a review of 115 cases over 4 decades. Otolaryngol Head Neck Surg* 2015; 152(1):136-42.
- 11) Manolidis S, Shohet JA, Jackson CG, Glasscock ME. *Malignant Glomus Tumors. Laryngoscope* 1999;109:30-4.
- 12) Woods CI, Stransnick B, Jackson CG. *Surgery for glomus tumors: the otologic group experience. Laryngoscope* 103 Suppl 1993;60:65-70.
- 13) O'Leary MJ, Shelton C, Giddings NA, Kwartler J, Brackmann DE. *Glomus tympanicum tumors: a clinical perspective. Laryngoscope* 1991;101(10):1038-43.
- 14) Jackson CG, Willing B, Chitonis P, Glasscock ME, Wood CI. *Glomus tympanicum tumors: contemporary concepts in conservation. Laryngoscope* 1989;99(9):875-84.
- 15) Jackson CG. *Basic surgical principles of neurotologic skull base surgery. Laryngoscope* 1993;103(11 Pt Suppl 60):29-44.
- 16) Watanabe T, Mizuta K, Hamada N, Mineta H. *Two cases of glomus tympanicum tumor: determining the need for preoperative embolization in patients with glomus tympanicum tumor. Otology Japan* 2007;17:665-70.
- 17) Jackson CG, Glasscock ME, Harris PF. *Glomus Tumors. Diagnosis, classification, and management of large lesions. Arch Otolaryngol* 1982;108(7):401-10.
- 18) Marchioni D, Villari D, Alicandri-Ciufelli M, Piccinini A, Presutti L. *Endoscopic open technique in patients with middle ear cholesteatoma. Eur Arch Otorhinolaryngol* 2011; 268(11):1557-63.
- 19) Tarabichi M. *Endoscopic management of cholesteatoma: long-term results. Otolaryngol Head Neck Surg* 2000;122 (6):874-81.
- 20) Gavin J, le Nobel, Sharon L. Cushing, Blake C. Papsin, Adrian L. *James Intraoperative Bleeding and the Risk of Residual Cholesteatoma: A Multivariate Analysis. Otolology & Neurotology* 2017;38(4):529-34.
- 21) Lee JH, Lee JW, Moon SK, Park KH. *A case of glomus tympanicum tumor. J Clinical Otolaryngol* 2005;16(1): 149-53.