

외이도에 반복적으로 재발한 다형선종 1예

중앙대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

박성윤 · 위민우 · 이세영 · 양훈식

Recurrent Pleomorphic Adenoma of the External Auditory Canal : A Case Report

Sung-Yoon Park, MD, Min-Woo Wi, MD, Sei-Young Lee, MD and Hoon-Shik Yang, MD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Chungang University
College of Medicine, Seoul, Korea

-ABSTRACT-

Pleomorphic adenoma arises commonly in major salivary gland, but it occurs from external auditory canal in literature. It is well known that incomplete surgery for example, simple enucleation or partial resection, cause high recurrence rate of tumor. Surgery requires wide excision with adequate normal margin surrounding the tumor. We experienced a case of pleomorphic adenoma of the external auditory canal, which recurred four times after local excision with laser. We report the case with a brief review of related literature. (J Clinical Otolaryngol 2006;17: 244-247)

KEY WORDS : Pleomorphic adenoma · External auditory canal.

서론

다형선종은 조직학적으로 중배엽성 기질 위에 상피세포 성분이 분포하고 있어 혼합종이라고도 불린다.¹⁾ 주타액선이나 구개에 분포되어 있는 소타액선에 호발하고,²⁾ 비강이나 구인두, 협부 등에서 보고된 예가 있으며,³⁾ 외이도에도 드물게 발생하는 것으로 알려져 있다.⁴⁾ 외이도에 발생하는 다형선종은 대부분 이구선 조직으로부터 발생하고 초기증상은 이루와 청력 저하, 무통성 종괴 등으로 나타난다고 알려져 있으며,⁵⁾ 10% 내외에서 악성

변화를 할 수 있는데 대개 10~20년의 기간이 걸린다고 알려져 있다.⁶⁾ 치료로는 부분절제시의 높은 재발률 때문에 주위 정상 조직을 충분히 포함한 수술적 절제와 장기간의 추적관찰이 필요하다.⁷⁾ 국내에서는 이기에 발생한 다형선종 1예와 외이도에 발생한 다형선종 2예만이 보고되어 있다.³⁾⁸⁾⁹⁾

저자들은 개인의원에서 레이저를 이용한 4회의 수술을 시행하였음에도 반복적으로 재발한 외이도의 다형선종 1예에 대하여 이내접근법을 통한 광범위 절제로 재발이나 악성화 소견없이 성공적으로 치료하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

57세 남자 환자가 반복적으로 재발하는 우측 외이도의 종물감을 주소로 내원하였다. 내원 전 개인의원에서 총 4회의 레이저 수술을 시행받았으나, 반복적으로 재발한

논문접수일 : 2006년 8월 7일
심사완료일 : 2006년 10월 30일
교신저자 : 양훈식, 156-755 서울 동작구 흑석동 224-1
중앙대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실
전화 : (02) 6299-1765 · 전송 : (02) 825-1765
E-mail : cauent@hanafos.com

병력이 있었으며, 이학적 검사상 우측 외이도 연골부 전하방에 직경 1 cm 크기의 무통성이며, 비교적 부드럽고 불규칙한 표면의 융기된 종괴가 보였다(Fig. 1). 외이도의 신생물 의심하에 조직검사와 측두골 전산화단층촬영을 시행하였으며, 조직검사 결과는 중등도의 만성 염증 소견 이외에 특이 소견은 없었고, 측두골 전산화단층촬영에서는 우측 외이도의 전벽에 위치한 1 cm×1 cm 크기의 경계가 불분명하며, 골파괴 소견이 없는 연조직 종괴가 보였다(Fig. 2). 순음청력검사에서 우측은 기도 38 dB, 골도 4 dB의 전음성 난청의 소견을 보였고 어

음청취역치는 40 dB, 어음명료도는 98%를 나타냈으며 좌측은 기도 10 dB, 골도 5 dB로서 정상 청력소견을 보였다. 혈액 검사상 이상소견은 없었으며, 경도의 고혈압 외에는 특이소견 없었다. 이상의 소견을 종합하여 폴립, 육아종, 종양성 병변 등의 추정 진단하에 수술적 제거를 계획하였다. 수술은 전신 마취 하에 이내 접근법을 통하여 시행하였다. 수술소견상 직경 1 cm 크기의 주위 조직과 경도의 유착을 보이고, 외이도 연골부의 전하부 1 cm

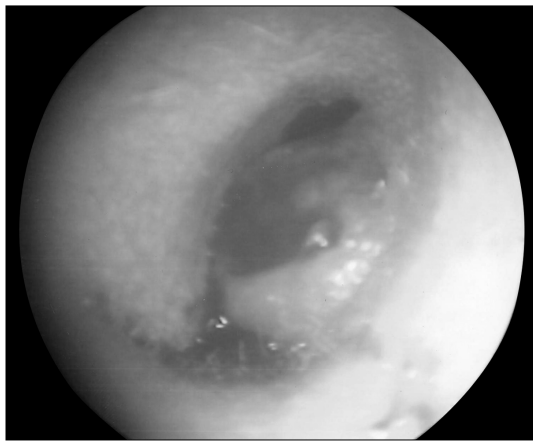


Fig. 1. Preoperative otoscopic finding. Protruding mass lesion was observed at the anterior portion of right external auditory canal.

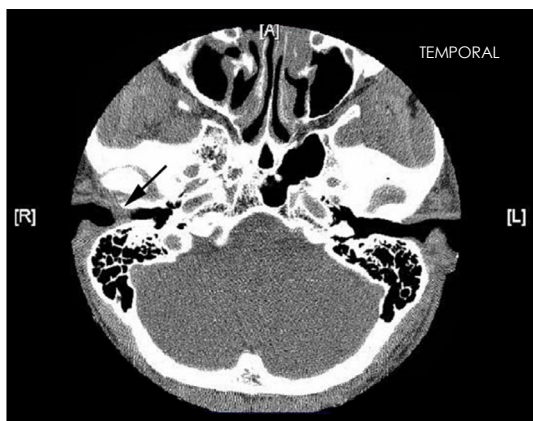


Fig. 2. Axial view of preoperative temporal bone CT scan. 1×1 cm sized ill-defined soft tissue mass was noted at bony cartilaginous junction of the right external auditory canal (arrow).

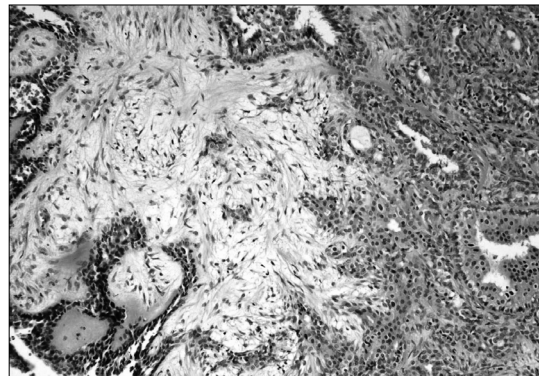


Fig. 3. Pathologic finding of pleomorphic adenoma in the external auditory canal. The tumor had a typical biphasic appearance from admixture of epithelial and stromal elements. Myxoid areas were contained anastomosing strands of epithelial cells (H & E, ×200).



Fig. 4. Postoperative otoscopic finding after 2 years. This showed intact canal wall and no evidence of recurrence (arrow).

위치에 기저부를 차지하는 종괴가 보였다. 종괴를 제거하기 위해서 종괴 기저부에 인접한 외이도의 정상적인 피부에 절개를 가하고 연골막까지 포함한 광범위한 박리를 시행하여 종괴를 완전히 제거할 수 있었다. 종괴 주위로 3 mm의 절제연을 두어 종괴를 덮고 있는 상피를 함께 제거하였으며 이개후부로부터 피부이식술을 시행하고 외이도 패킹을 시행하였다. 환자는 수술 후 5일째 합병증이 퇴원하였다. 조직검사상 근상피세포로 둘러싸인 관상 구조와 점액모양의 바탕질이 혼합된 소견 관찰되어 다형선종으로 진단할 수 있었다(Fig. 3). 퇴원 1년 후 시행한 청력검사서 정상 청력을 회복하였으며 술 후 2년까지 특이 소견 없이 외래 추적 관찰중이다(Fig. 4).

고 찰

성인의 외이도 외측 1/3은 연골부로 구성되어 있고, 내측 2/3는 골부로 구성되어 있으며, 모낭, 피지선, 이구선 등의 피부부속기는 연골부에만 분포한다.¹⁰⁾ 이러한 피부의 부속기에는 인체 피부의 대부분에 존재하고 주로 체온 조절을 담당하는 에크린 한선과 액와, 외이도, 눈꺼풀, 유방 등에서 한정 되어 발견되며 냄새를 내는 기능이 있는 것으로 생각되는 아포크린 한선이 존재한다.¹¹⁾ 이 중 외이도에서는 정상적으로 피지선과 아포크린 한선이 함께 존재하면서 보호물질로서 이구를 생성한다.

외이도에 발생한 종양의 대부분은 외이도의 표피에 위치한 아포크린 한선의 변형된 형태인 이구선 조직으로부터 발생한다.⁵⁾ 따라서 이구종이라는 용어는 외이도에서 발생하는 선종과 암종을 포함하여 많은 수의 분비선에서 발생하는 종양들을 통칭하는 것으로 사용되고 있다.¹²⁾ Wetli 등은 이러한 용어를 세분화하여 이구종을 이구선종, 이구선암, 선양낭성암종, 다형선종(혼합종)의 네 가지로 분류하였다.¹³⁾ 외이도에서 발생한 다형선종은 이 네 가지 분류 중 가장 드문 것으로 보고되고 있다.⁵⁾

외이도와 같이 이하선과 떨어진 부위에서 발생하는 다형선종은 피부의 부속기로부터 유래하는 것으로 생각할 수 있다.⁵⁾ Collins와 Yu는 면역조직 화학염색법을 이용하여 외이도에서 발생하는 다형선종과 이구선과의 밀접한 연관성이 있음을 증명하였다.¹²⁾ 다른 가설로 이소성 타액선 조직이 외이도에서 존재할 수 있다는 주장이 있었

으나, 현재까지는 이구선 조직에서 기원한다는 가설이 여러 문헌상에서 가장 유력하게 제시되고 있다.³⁾

외이도에 발생한 다형선종도 다른 부위에 발생한 다형선종과 마찬가지로 조직학적 검사에 의해 진단된다. 다형선종은 조직학적으로 선상 또는 관상 분화를 보이는 상피 세포성분과 점액 또는 연골 형태의 기질성분으로 구성되어 있다.¹⁴⁾ 수지상의 표피세포가 집단을 이루며 주변부로 방추형 세포들이 섬유상의 점액성 기질에 나타나는 양상으로 관찰되는데, 이는 세포도말상 경계가 명확한 기저양 세포들이 별집모양으로 나타나는 선양낭성암종과의 감별 기준이 된다.¹⁵⁾ 이외에 외이도에 발생하는 종물로서 감별해야 할 질환으로는 골종, 외골종, 섬유성 이형성종, 외이도 진주종, 폐쇄성 각화증 등이 있다.¹⁶⁾ 골종 및 외골종은 주로 골성 외이도에 발생하는 종물로 골종은 불규칙하게 골세포에 둘러싸인 섬유혈관성 조직으로 이루어져 있으며,¹⁷⁾ 외골종은 대부분 양측성으로 발생하고 표면은 외이도의 편평상피와 골막으로 덮여 있으며 골막하층은 골세포가 풍부하고 일정하게 동심성으로 배열된 치밀한 층판골층으로 구성되어 있다.¹⁸⁾ 외이도 진주종은 환측의 농성이루와 난청, 이통을 유발하는 병변으로, 골과피와 골막염을 동반하기도 한다.¹⁵⁾ 다형선종의 진단을 위해 방사선학적으로 전산화단층촬영, 자기공명영상 등을 시행하는데, 전산화단층촬영상 주위 조직과의 경계가 비교적 분명하고 골과피 소견은 보이지 않는 것으로 알려져 있다.⁵⁾

외이도에 발생한 다형선종에 관한 지금까지의 보고들 중, Haraguch 등은 외이도의 원발성 다형선종 25례에 관한 문헌보고에서 이루, 무통성 종물, 청력감소, 이충만감 등을 일반적인 증상이라 하였으며 외이도의 어떤 위치에서도 발생 가능하지만 후상부에서 비교적 호발한다고 하였다.⁵⁾ 국내에서는 1989년 Kim⁹⁾ 등과 2001년 Kim³⁾ 등에 의해 보고된 바 있다.

외이도에 발생한 다형선종의 치료는 수술적 제거를 시행하며, 방사선 치료는 오히려 악성화를 유발할 수 있어 다형선종의 치료에는 효과적이지 못하다.⁴⁾ 이하선에 발생한 다형선종과 마찬가지로 수술적 치료시 단순히 종괴만을 절제하는 것은 미세현미경적 잔여 종괴 조직을 남길 수 있고 부분적 수술 자체가 tumor seeding을 초래할 수 있으며⁴⁾ 유병기간에 따라 악성화할 수 있으므로 재

발의 방지를 위하여 가능한 충분한 범위의 주위 정상조직을 함께 절제하고, 오랜 기간을 두고 주의깊은 추적관찰을 시행해야 한다. 본 증례에서도 개인의원에서 4차례에 걸쳐 레이저 수술을 시행한 후에도 반복적으로 재발한 것은 불충분한 수술로 인해 잔여 종괴 조직이 남아 있었기 때문으로 사료되며 주위조직을 포함한 광범위한 절제를 시행한 결과 수술 후 2년이 지난 현재까지 재발 없이 매년 정기적으로 검진하고 있다.

중심 단어 : 다형선종 · 외이도.

REFERENCES

- 1) Kilpatrick SE, Hitchcock MG, Kraus MD, Calonje E, Fletcher CD. *Mixed tumors and myoepitheliomas of soft tissue. A clinicopathologic study of 19 cases with a unifying concept. Am J Surg Pathol* 1997;21:13-22.
- 2) Tommerup B, Mogensen C. *Pleomorphic adenoma of the nose. Rhinology* 1983;21:79-82.
- 3) Kim YK, Park JH, Mun SY, Yoon YJ. *A case of pleomorphic adenoma of the external auditory canal. Korean J Otolaryngol* 2001;44:105-7.
- 4) Kenji S, Shunkichi B, Naoya M. *Pleomorphic adenoma of the external auditory canal in Japan, with a case report. Auris Nasus Larynx* 1991;18:271-9.
- 5) Haraguch H, Hentona H, Tanaka H, Komatuzuki A. *Pleomorphic adenoma of the external auditory canal: A case report and review of the literature. J Laryngol Otol* 1996;110:52-6.
- 6) Shim YS, Oh KK, Lee YS, Han YC, Chu MJ. *A Clinical study on salivary gland tumors. Korean J Otolaryngol* 1990;33:329-38.
- 7) Hicks GW. *Tumors arising from the glandular structures of the external auditory canal. Laryngoscope* 1980;106:440-1.
- 8) Goh EK, Lee IW, Park HM, Lee BJ. *A case of pleomorphic adenoma of the auricle. Korean J Otolaryngol* 1999;42:514-6.
- 9) Kim SI, Lee JS, Yu TH. *Pleomorphic adenoma of the external auditory canal. Korean J Otolaryngol* 1989;32:945-9.
- 10) Lucente FE, Lawson W, Novick NL. *The external ear. Philadelphia. WB Saunders;1995*
- 11) Lever WF, Schaumburg-Lever G. *Histopathology of the skin. Philadelphia. JB Lippincott;1990*
- 12) Collins RJ, FRCPA, Yu HC, FRCS. *Pleomorphic adenoma of the external auditory canal: An immunohistochemical and ultrastructural study. Cancer* 1989;64:870-5.
- 13) Wetli CV, Pardo V, Millard M, Gerston K. *Tumors of ceruminous glands. Cancer* 1972;29:1169-78.
- 14) Xiaoyan T, Yoshiyuki T, Yutaka T. *Mixed tumor of the external auditory canal: Case report. Pathol Int* 1994;44:80-3.
- 15) Kapadia SB, Dusenbery D, Dekker A. *Fine needle aspiration of pleomorphic adenoma and adenoid cystic carcinoma of salivary gland origin. Acta Cytol* 1997;41:487-92.
- 16) LeAnh P, Kenneth M, Samuel H, Selesnick M. *Benign Lesions of the External Auditory Canal. Otolaryngol Clin North Am* 1996;29:807-12.
- 17) Kwun YS, Lee SY, Hwang SJ. *A case of extraskelatal condroma of extrnal auitory canal. Korean J Otolaryngol* 2001;44:431-3.
- 18) Graham MD. *Osteoma and exostoses of the external auditory canal. Ann Otol* 1979;88:566-72.