

중이 선종 1예

울산대학교 의과대학 서울아산병원 이비인후과학교실

조영욱 · 김도윤 · 박홍주

A Case of Middle Ear Adenoma

Young Wook Cho, MD, Do-Youn Kim, MD and Hong Ju Park, MD

Department of Otolaryngology, Aasan Medical Center, College of Medicine, Seoul, Korea

— ABSTRACT —

Middle ear adenoma is a rare benign tumor of the tympanic cavity. The first report of a adenomatous tumor of middle ear was published in 1976 by Hyams. It can have both neuroendocrine and epithelial differentiation. Immunohistochemical techniques have helped clarify that these tumors all share elements of neuroendocrine differentiation. Due to non specific clinical symptom and imaging finding, preop-diagnosis was difficult. And behavior of middle ear adenoma was not predictable. In the past few years, there have been reports on metastasis of middle ear adenomas. In this study, we present a case of middle ear adenoma of a patient complaining non whirling type vertigo, hearing difficulty, which was diagnosed by histopathologic finding. (*J Clinical Otolaryngol* 2012;23:243-247)

KEY WORD : Middle ear adenoma.

서론

중이 내 선종성 종양은 1976년 Hyams 등이 처음으로 보고한 뒤 다양한 선종성 종양이 보고되었다.¹⁾ 중이 선종의 임상적으로 가장 흔한 증상은 일측성, 전도성 난청으로 이학적 소견상 고막은 정상인 경우가 많다.²⁻⁴⁾ 중이 내 선종성 종양의 진단은 병리 소견 및 면역조직화학 소견을 바탕으로 한다. 그러나 비특이적인 임상 증상, 방사선 소견 그리고 이학적 소견과 명확하지 않은 조직학적 구

분으로 여러 다른 이름의 종양과 통용되어 왔다.

우리나라에서는 1991년에 Kwon 등, 2000년 Jun이 중이 선종을 보고하였고 2011년 Shin 등이 중이 내 칼시노이드 종양을 보고하였다.⁵⁻⁷⁾ 저자들은 비회전성 어지럼증, 전음성 난청을 주소로 내원한 46세 여자 환자에서 수술적 치료 후 조직병리학적으로 중이선종으로 진단한 1예를 체험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

46세 여자환자가 내원 3주 전부터 발생한 어지럼증을 주소로 타원 내원하여 시행한 이내시경 소견상 우측 상고실내 종괴가 관찰되어 큰 병원 방문 권유받고 본원에 내원하였다. 회전성이 아닌 어지럼증은 1주에 1차례 정도, 빨리 일어날 때 발생하였고 30초에서 1분 정도 지속되었다. 내원 5일전부터 우측의 이충만감이 나타났고 내

논문접수일 : 2012년 6월 11일
논문수정일 : 2012년 7월 9일
심사완료일 : 2012년 8월 8일
교신저자 : 박홍주, 138-736 서울 송파구 올림픽로 88
울산대학교 의과대학 서울아산병원 이비인후과학교실
전화 : (02) 3010-3710 · 전송 : (02) 489-2773
E-mail : dzness@amc.seoul.kr

원 2일 전부터 간헐적으로 바람소리 같은 이명 증상도 함께 동반되었다. 고혈압이나 당뇨 등의 특별한 과거력이 없는 환자로 이경 소견상 좌측 고막은 정상 소견이고 우측 고막에서 이루나, 천공 등은 관찰되지 않으나 상고실과 고막의 뒤 절반에 걸쳐 외이도로 돌출된 종괴가 관찰되었다(Fig. 1).

순음 청력 검사상 골도 청력 12 dB, 기도 청력 25 dB로 우측의 전음성 난청 소견을 보였다(Fig. 2). 측두골 전산화 단층촬영 소견상 우측 중이강, 유양동, 유돌봉소까지 채우고 있는 연부조직의 음영을 볼 수 있었고 이소골 및 내이 구조물들의 소실은 없었다(Fig. 3). 진주중성 중이염, 중이 종양 진단 하 우측 유양동 삭개술 및 고실 성형술을 계획하였다.

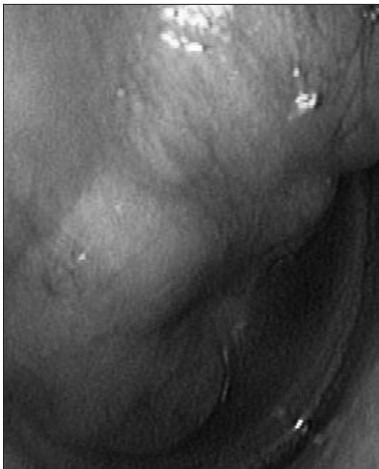


Fig. 1. Otoscopic finding of right ear shows bulging mass on posterior-half and attic region of tympanic membrane.

수술 소견상 Jacobson 신경에서 기원한 종양으로 생각되는 하얀색 종괴가 상고실에서 이소골을 감싼 형태로 상고실까지 연장되어 있었다. 이관은 개방된 상태이고 고실 내 안면 신경관의 뼈 결손은 관찰되지 않았다. 개방성 유양동 삭개술을 통해 종괴를 제거하면서 침골도 함께 제거되었다. 등골 주변의 종괴는 제거 과정 중 등골 손상이 우려되어 일부 제거하지 못했다. 등골의 운동성은 좋은 상태로 3 mm 크기의 티타늄을 이용하여 부분 이소골 대체술 후 측두 근막 이식술을 시행하였다. 환자는 출혈이나 감염 없이 수술 4일 후 퇴원하였다.

조직검사상 H-E 염색에서 종양세포는 부분적으로 선상 또는 판상 배열 형태를 보였고 세포가 작고 핵 대 세포질의 비율이 더 높게 나타났다. 이형성과 세포분열의 소견은 없었고 장방형 또는 원주형 모양으로 H&E 염색에서 양성으로 염색되는 다양한 양의 세포질과 등글거린 난원형의 핵이 관찰되었다. 신경과 혈관으로의 전이는 보이지 않았고 간질은 섬유성 또는 점액성의 양상을 띠고 있었다(Fig. 4).

수술 후 6개월 뒤 측정된 순음 청력 검사상 우측 귀의 기도청력은 23 dB로 수술 전과 비슷한 청력 소견을 보였다(Fig. 2). 수술 전 관찰되었던 회전성 어지럼증과 이명은 수술 후 호전되었다. 6개월 경과 관찰 상 우측 고막은 잘 재건된 상태이고(Fig. 5) 전산화 단층 촬영 소견상 재발 소견은 없다(Fig. 6).

고 찰

중이 선종은 드문 양성 종양으로 1976년 Hyams 등에

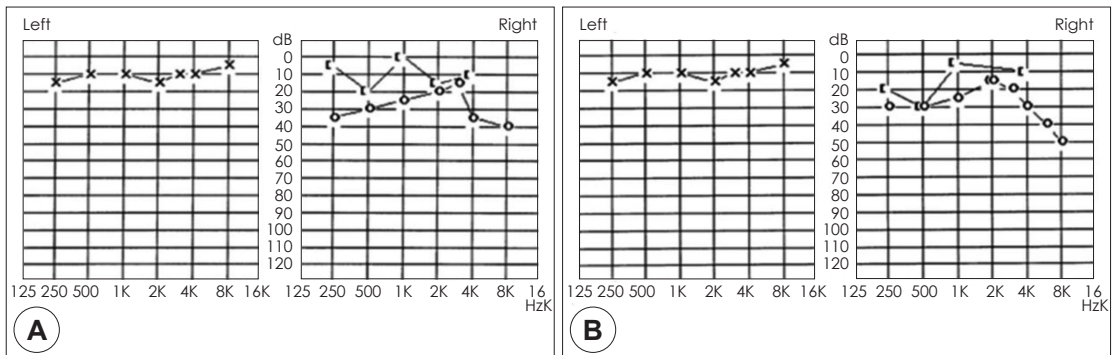


Fig. 2. There was no significant change in hearing results in 6month after operation (A : Pre-op. B : Post-op 6 month).

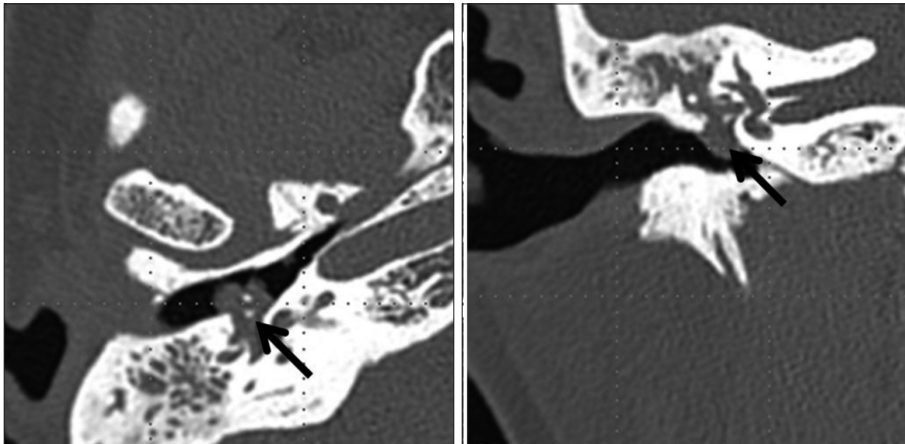


Fig. 3. Preoperative temporal bone CT scan shows a soft tissue density in right middle ear cavity and mastoid cells (Black arrow indicates the middle ear mass).

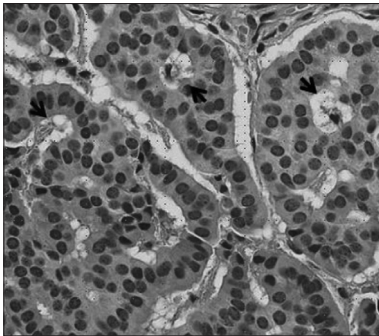


Fig. 4. Light microscopic finding shows prominent glandular pattern (black arrow) with a single layer of small round cells in trabecular arrangement. There was rare mitosis and abundant intracytoplasmic mucin (H&E stain, $\times 400$).

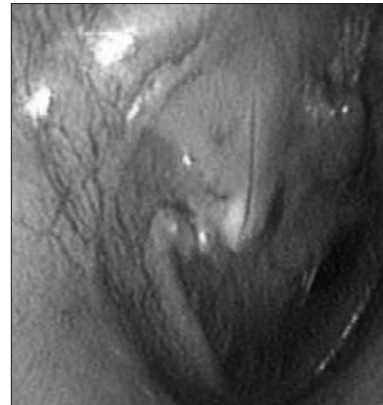


Fig. 5. In 6 month after open cavity mastoidectomy, right tympanic membrane was intact.

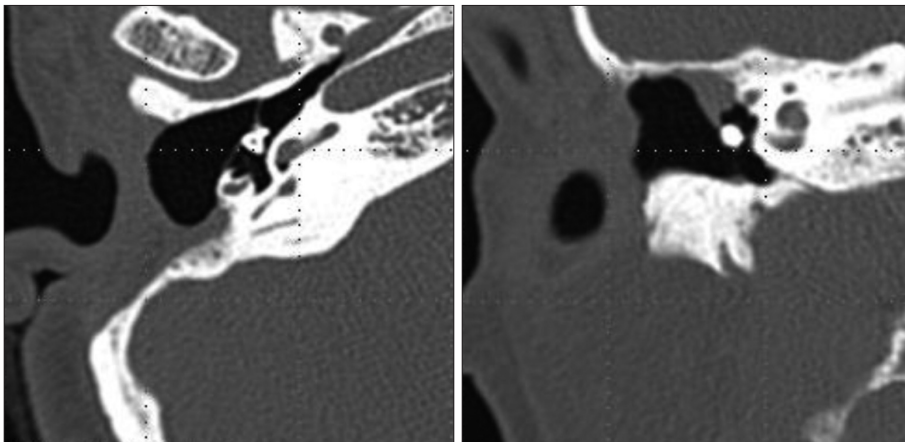


Fig. 6. There was no tumor recurrence in temporal bone computed tomography of 6 month after open cavity mastoidectomy.

의해 처음으로 양성 선종양(benign adenomatous tumor)으로 보고되었다.¹⁾ 우리나라에서는 1991년에 Kwon 등, 2000년 Jun이 중이 선종을 보고하였고 2011년 Shin 등이 중이 내 칼시노이드 종양을 보고하였다.⁵⁻⁷⁾ 그러나 현재까지 명확한 조직병리학적 진단 기준은 없다. 평균 발병 연령은 45세이고 성별에 따른 발병율의 차이는 없는 것으로 알려져있다.⁸⁾ 중이내 선종은 하양거나, 노란, 혹은 갈색의 단단한 종괴로 일반적으로 혈관화(vascularization)가 좋지 않다.⁸⁾

중이 선종의 임상적으로 가장 흔한 증상은 일측성, 전도성 난청으로, 동측의 이충만감, 이명 등이 동반될 수 있고 현훈은 드문 증상이다.²⁻⁴⁾ 이학적 소견상 고막은 정상인 경우가 많고 고막을 통해 중이내 종괴가 돌출되어 보이기도 한다.⁹⁾ 이외에 안면 신경마비, 두개내 합병증 등이 동반될 수 있다.¹⁰⁾

중이 선종의 전산화 단층 촬영 소견은 경계가 잘 구분되고 골미란이 동반되지 않은 비특이적인 연부조직 음영이 가장 흔하다.¹¹⁾ 단순 전산화 단층 촬영 소견으로는 삼출성 중이염이나 만성 중이염과 감별이 어렵다.¹¹⁾ 선종의 가돌리늄(gadolinium) 조영제 주입 후 자기 공명 영상 소견은 T1 강조 영상에서 낮거나 중등도 신호 강도를 보이고 T2 강조 영상에서 고신호 강도를 보인다.¹²⁾

중이 선종 세포들은 장방형 또는 원주 세포로 구성된 단층으로 구성되며 그 경계가 뚜렷하고 염색질이 고르게 분포하는 반면 선암은 세포의 이형성 및 핵분열 양상을 보인다.¹³⁾ 선종성 종양은 여러 조직 배열 형태가 혼합된 상태로 보고된다. 선상(glandular) 배열이 가장 흔하고 판상(trabecular) 혹은 리본 양상(ribbon-like), 유두상 배열(papillary) 등이 보고되고 있다. 특히 선상 배열이나 판상 배열은 유암종, 선종 등과 같은 종양에서 유두상 배열은 임상적으로 좀더 악성의 경향을 보이는 내림프낭 기원의 유두상 선종성 종양과 선암에서 우세하다고 알려져 있다.¹⁴⁾ 중이 선종의 진단의 기초가 되는 면역 조직 화학적 표식자로는 신경 분비 과립 단백질에 특이적인 chromogranin, 신경 내분비계 종양에 특이 단일 클론 항체인 synaptophysin, 신경내분비계 세포 및 종양에 존재하는 enolase의 동위 효소인 NSE 등이 있다.^{14,15)}

중이 내 종양은 임상적으로 원발 부위가 중이인지 주위 구조에서 전이된 것인지 감별해야 하는데 임상적으로 악

성인 경우는 신장이나 갑상선의 원격 전이를 감별해야 한다.^{11,16)} 감별해야 할 질환으로 혈관 아세포종(hemangioblastoma), 유암종(carcinoid tumor), 이구선종(ceruminous gland tumor), 부신경절종(paraganglioma) 등이 있다. 중이 선종은 장방형 혹은 원주 형의 중이에 위치한 한 층으로 구성되어 있으나 이구선종(ceruminous gland adenoma)은 중이 선종과 달리 외이도에서 발견되고 안 측의 분비층과 바깥 측의 근육상피 층의 2층으로 구성되어 있다.¹²⁾ 내림프 낭종(endolymphatic sac tumor)은 감별진단이 어려운 종양으로 내이에서 발견되고 특히 골과괴를 동반한다.¹²⁾ 이구선종, 내림프 낭종 모두 중이까지 침범할 수 있다. 부신경절종은 세포들이 고형 동지(solid nest) 형태를 보이고 혈관 분포가 잘 되어 있다.¹²⁾

중이 선종으로 진단된 경우 일반적으로 부분 절제술 및 이소골 성형술만으로 충분한 것으로 알려져 있으며 방사선 치료의 효과는 아직 불분명하다.^{11,17)} 재발하거나 절제가 불가능할 때, 또는 악성인 경우 방사선 치료를 고려할 수 있다.¹⁸⁾ 술 후 재발과 전이 가능성 때문에 오랜 기간 경과 관찰이 필요하다.

본 예에서 중이 내 국한되고 골과괴 등의 소견이 관찰되지 않았고 현미경 소견상 세포들의 이형성이나 세포분열의 소견없이, 선상 및 판상 배열의 혼합형으로 나타나 선암들과 감별되었다. 유양동 삭개술을 통해 병변을 제거 받은 6개월 후 현재까지 재발소견은 관찰되지 않으나 재발이나 전이 가능성이 배제할 수 없어 꾸준한 외래 관찰이 필요하다.

중이 선종은 흔히 정상 고막 소견을 보이거나 본 예에서는 상고실과 고막의 뒤편으로 돌출된 종괴가 관찰되었다. 또한 많은 경우 전도성 난청을 주소로 내원하나 본 예에서는 비회전성 어지럼증을 주소로 내원하였다. 중이 선종은 비특이적 임상적 증상과 방사선 소견을 보임으로, 중이 내 천천히 자라는 종괴가 관찰될 때 중이 내 선종을 감별진단에 포함시켜야 한다.

중심 단어 : 중이 선종.

REFERENCES

1) Hyams VJ, Michaels L. *Benign adenomatous neoplasm (adenoma) of the middle ear. Clinical otolaryngol Allied Sci 1976;1(1):17-26.*

- 2) Amble FR, Harner SG, Weiland LH, McDonald TJ, Facer GW. *Middle ear adenoma and adenocarcinoma. Otolaryngol Head Neck Surg* 1993;109(5):871-6.
- 3) Heffner DK. *Low-grade adenocarcinoma of probable endolymphatic sac origin A clinicopathologic study of 20 cases. Cancer* 1989;64(11):2292-302.
- 4) Jahrsdoerfer RA, Fechner RE, Moon CN Jr, Selman JW, Powell JB 2nd. *Adenoma of the middle ear. Laryngoscope* 1983;93(8):1041-4.
- 5) Jun BH, Han YH, Yoon SP, Park SY. *A case of the middle ear adenoma. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 2000;43(1):95-8.
- 6) Kwon J, Koh JW, Park SI, Jeong SH, Kim KY, Paik SI. *A case of adenomatous tumor of the middle ear. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1991;34(6):1322-7.
- 7) Shin BS, Kim JR, Jeong HW, Kim EK. *Two cases of middle ear adenoma with neuroendocrine differentiation (Carcinoid Tumor). Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54(8):573-7.
- 8) Barnes L. *Pathology and genetics of head and neck tumours. World Health Organization;2005.*
- 9) Ho VT, Rao VM, Mikaelian DO. *CT of adenomas of the middle ear and mastoid cavity. J Comput Assist Tomogr* 1996;20(2):219-20.
- 10) Stanley MW, Horwitz CA, Levinson RM, Sibley RK. *Carcinoid tumors of the middle ear. Am J Clin Pathol* 1987;87(5):592-600.
- 11) Eden A, Pincus R, Parisier S, Som P. *Primary adenomatous neoplasm of the middle ear. Laryngoscope* 1984;94(1):63.
- 12) Zan E, Limb CJ, Koehler JF, Yousem DM. *Middle ear adenoma: a challenging diagnosis. AJNR Am J Neuroradiol* 2009;30(8):1602-3.
- 13) Li JC, Brackmann DE, Lo WW, Carberry JN, House JW. *Reclassification of aggressive adenomatous mastoid neoplasms as endolymphatic sac tumors. Laryngoscope* 1993;103(12):1342-8.
- 14) Bold EL, Wanamaker JR, Hughes GB, Rhee CK, Sebek BA, Kinney SE. *Adenomatous lesions of the temporal bone immunohistochemical analysis and theories of histogenesis. Otol Neurotol* 1995;16(2):146-52.
- 15) Poe D, Tarlov E, Thomas C, Kveton J. *Aggressive papillary tumors of temporal bone. Otolaryngol Head Neck Surg* 1993;108(1):80-6.
- 16) Delisle M, Uro E, Rouquette I, Yardeni E, Rumeau J. *Papillary neoplasm of the endolymphatic sac in a patient with von Hippel-Lindau disease. J Clin Pathol* 1994;47(10):959-61.
- 17) Ramsey MJ, Nadol Jr JB, Pilch BZ, McKenna MJ. *Carcinoid tumor of the middle ear: clinical features, recurrences, and metastases. Laryngoscope* 2005;115(9):1660-6.
- 18) Dogru S, Wilkinson EP, Robinson RA, Smith RJ. *Middle ear adenoma with neuroendocrine differentiation (MEAND) in the pediatric population. Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2009;73(6):895-8.