

만성 경과를 취한 악성외이도염 1례

부산대학교 의과대학 이비인후과학교실, 성분도 병원 이비인후과*
고의경 · 고영한* · 박형진 · 장민호

A rare case of malignant external otitis due to *Enterococcus faecalis* with chronic course

Eui-kyung Goh, M.D., Young-Han Ko, M.D.*
Hyoung-Jin Park, M.D., Min-Ho Jang, M.D.

Department of Otolaryngology, College of Medicine,
Pusan National University,
Saint Benedict Hospital*, Pusan, Korea

= Abstract =

Malignant external otitis(MEO) is debilitating and occasionally fatal infection of the external auditory canal in elderly diabetes and patients with reduced immunity. Diabetic microangiopathy enhances the vasculitis produced by the *Pseudomonas* organism. This disease may spread from the external auditory canal through Santorini's fissures to invade the preauricular tissue, and soft tissue at the base of skull. This disease generally has acute fatal course and most frequently caused by *Pseudomonas aeruginosa*. Recently, the authors experienced a case of malignant external otitis with chronic course, caused by *Enterococcus faecalis*. So we reported this case with review of literatures.

KEY WORDS : *Malignant external otitis. chronic course. Enterococcus faecalis*

서 론

악성외이도염은 염증이 외이도에서 시작하여 두개저까지 파급될 수 있는 비교적 드물지만 치명적인 질환으로 1959년 Meltzer와 Keleman이 측두골과 두개저의 *Pseudomonas*에 의한 골수염을 기술하였고, Chandler가 1968년 이후로 악성 외이도염의 정확한 임상상을 소개하여 이비인후과 영역에서 널리 알려지게 되었다.

본 질환은 주로 노년층의 당뇨병 환자에서 호발하

나 면역기능이 저하되는 모든 질환을 가진 환자에서도 발생이 가능하며, 주원인균은 *Pseudomonas aeruginosa* 로 외독소를 생산하여 국소조직을 파괴하고 식세포작용을 방해하여 괴사성 혈관염을 일으키고 염증이 외이도에서 시작하여 Santorini 열을 통하여 주위 조직과 두개저까지 빠른 속도로 침범하여 치명적인 경과를 보인다. 국내에서도 보고되어 있고 임상적으로도 가끔 경험할 수 있어 아주 드문 질환은 아니다. 그러나 만성적인 경과를 보이는 경우에 대한 보고는 국내외적으로 매우 드물다.

최근 저자들은 진행적으로 *Pseudomonas aeruginosa*를 원인균으로 하고 급성적이며 치명적인 경과를 보이는 악성외이도염과 달리 비교적 건강상태가 좋으며 당뇨 조절이 잘 되고 있는 40대 여자환자에서 *Enterococcus faecalis*를 원인균으로 하고 약 6년 이상 지속되고 있는 만성적인 경과를 취하는 악성 외이도염 1례를 경험 하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환자 : 노○옥, 49세 여자

초진일 : 1996년 12월 23일

주소 : 약 5년간 지속된 우측 이통 및 이무

과거력 : 1991년 당뇨병으로 진단받은 후 간헐적으로 불규칙하게 경구용 혈당강하제를 복용하며 식이요법을 시행하고 있었다. 1985년 좌측 Bell 마비로 추정되는 안면 신경마비가 있었으나 특별한 치료없이 회복되었다.

현병력 : 1992년 우측 이통, 이무 및 외이도 주위 종창이 있어 치료하였으나 완전 소실되지 않고 계속되었다. 1994년 2월경 우측 안면 마비가 나타나 한 의원에서 침을 맞은 후 소실되었다고 하며 1995년 1월에는 우측 이통 및 우측 안면부 종창이 심해져 개인병원에서 계속 약물치료 및 국소치료 시행받았으나 호전되지 않아 1995년 8월에 종창 부위에 천자를 시행하였으나 이통 및 종창이 더욱 심해졌다. 개인의원에서 계속 약물치료 및 국소치료를 시행받다가 1996년 12월 23일 본원에 내원 후 입원하였다.

이학적 소견 : 우측 외이도를 채우고 있는 육아조직과 함께 화농성 이루가 보이고 이개주위 및 우측 안면부에 발적 및 종창이 발견 되었으며 고막은 관찰되지 않았다.

검사 소견 : 내원 당시 식전 혈당치는 243 mg/dl, 식후 2시간 혈당치는 171 mg/dl이었고 순음청력검사상 회화영역 평균 우측 골도 14 dB, 기도는 28 dB의 력소실을 보였다. 측두골 자기공명영상에서 우측외이도의 협착과 부인강, 이하선강, 협부강에 연부조직이 관찰되었고 난원공을 통하여 두개내로의 침범이 의심되는 소견이 관찰되었다(Fig. 1.). 골 침범

여부를 알기 위하여 촬영한 측두골 컴퓨터 단층촬영상에는 우측외이도 전벽의 미란이 관찰되었다(Fig. 2.). Ga-67 scan상 우측 추체골 부위에 hot uptake 보였으며(Fig. 3.) Tc-99m MDP scan상 우측 악관절 부위의 국소적인 uptake 증가가 관찰되었다. 외이도 분비물의 배양검사서 *Enterococcus faecalis*가 검출되었다. 적혈구 침강속도는 40mm/hr이었으나 일반혈액검사, 간기능검사 소견은 정상이었다.



Fig. 1. Axial section of T2-weighted MR image show tissue lesion at parapharyngeal space, parotid space, buccal space.

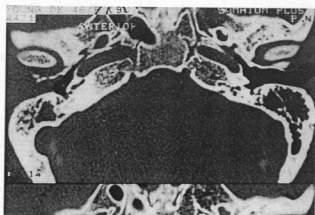


Fig. 2. Axial temporal bone CT scan reveals erosion of anterior external auditory wall and granulation tissue in external auditory canal and mastoid cavity.

치료 및 경과 : 당뇨 조절을 위하여 내과에 입원하여 NPH 30단위로 당뇨를 조절하며 Ceftezole과

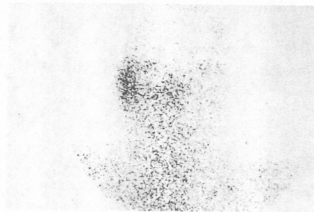


Fig. 3. Increased uptake of Ga-67 citrate is seen at right petrous bone lesion.

Amikacin 등의 항생제 치료와 외이도 육아조직을 제거한 후 국소치료를 시행하였고, 입원후 13일에 이비인후과로 전과하여 항생제 치료(Tobramycin 80mg i.v q 8hr, Ticarcillin 1.0g i.v q 8hr) 및 국소 치료를 시행하여 입원후 20일부터 이통 및 종창이 개선되었고 입원후 23일, 35일에 시행한 외이도 분비물 배양검사상 세균이 동정되지 않아 입원후 54일에 퇴원하였다. 퇴원당시 직혈구 침강속도는 19mm/hr로 감소되어있었다. 퇴원시 외이도 및 유양동을 비롯한 주위의 육아조직제거를 위한 수술을 고려하였으나 거부하고 퇴원하였다. 퇴원후에도 ciprofloxacin (500mg)으로 지속적인 항생제의 투여에도 불구하고 약간의 우측 이루가 관찰되었으나 입원후 약 100일 경부터 이루는 관찰되지 않았다.

1998년 6월 현재까지 Insulin 주사로 당뇨병 조절과 간헐적인 진통제 투여를 계속하고 있으나 간헐적인 통증과 이루가 발생하고 있으며 그림과 같이 외이도 입구부의 종창이 심하며, 안면부 및 이개부위에 압통이 없고 편평한 종창이 계속되고 있다.

고 찰

악성외이도염은 염증이 외이도에서 시작하여 두개저부께까지 파급되는 치명적인 염증성 질환으로 알려져 있다. 악성외이도염은 거의 대부분 노년층의 당뇨병환자에서 발생하나 면역기능이 저하된 환자에서도

발생하며¹⁾ 최근에 Mattuci²⁾ 등은 외이도의 편평상피암과 동반된 악성외이도염을 보고하였다.

당뇨병을 앓고 있는 경우 면역 방어 기전의 저하와 미세혈관의 병적인 상태 때문에 감염은 외이도에 국한되지 않고 외이도의 골, 연골 접합부를 통해 하악후부와 이하선외에 파급되고 혈관과 근막을 따라 두개저까지 확산되어 측두맥동과 해면 정맥동의 혈전증, 뇌신경 마비 등이 동반될 수 있다. Strauss³⁾ 등은 반대편 측두골로 파급되는 악성외이도염을 보고하였는데 이는 접형골 기저, 후두골 기저를 가로질러 반대편 추체첨부를 침범하여 발생한다고 하였다. 당뇨병 환자가 세균성 감염에 대한 방어 기전이 감소되는 것은 염증부위에서의 백혈구의 이동의 장애, 식균작용의 감소 등에 의한다⁴⁾. 근래 항생제의 발달과 적극적인 수술요법의 작용으로 치료결과가 좋아졌지만 두개저부에 염증이 있어 다발성 뇌신경 마비와 지속적인 감염이 있는 경우에는 여전히 높은 사망률을 보인다. Chandler⁵⁾는 악성외이도염 38례에서 안면신경 마비가 39%에서 있었으며 이때 사망률이 53%, 다발성 뇌신경 침범이 있는 경우에는 사망률이 80%라고 보고하였고 Meyerhoff⁶⁾ 등은 안면신경마비가 있는 경우 67%, 심부 뇌신경 침범이 있는 경우에는 80%의 사망률이 있었음을 보고하였다. 본 증례에서도 수년 전 동측에 안면신경마비가 발생한 적이 있어 그 시기가 급성기였을 것으로 추정되고 있다.

진단은 고령의 당뇨병 환자나 면역 억제 환자의 외이도염에서 통상적인 치료에 반응이 없는 경우에 의심해야 하며 임상적인 소견이 중요하다. 이통은 주로 밤에 심하고 외이도에 부종이 있으며 외이도 저부로부터 발생한 염증성 육아조직이나 농양이 있을 수 있다. Meyerhoff⁶⁾ 등은 악성외이도염의 심한 정도와 당뇨병의 정도는 유의한 상관관계를 나타낸다고 하였는데 본 증례에서는 경도의 당도가 비교적 쉽게 조절되었지만 이통과 이루가 지속되는 만성적인 경과를 나타내었다. 이런 임상적 소견은 골조직과 연부조직의 Scan과 측두골 전산화 단층 촬영, 자기공명 영상으로 확진된다. 측두골 전산화 단층촬영으로 골과 연부조직의 침범정도를 알 수 있는데 Uri⁷⁾ 등은 단층촬영 영상 골파괴의 소견이 있는 경우 뇌신경마비가 흔히 동반될 수 있다고 하였다. 최근에는 Gherini⁸⁾ 등이

자기공명 영상이 악성외이도염의 침범 정도를 평가하는데 전산화 단층촬영보다 뛰어나다고 보고하였다. Bone scan상 고실골과 두개저부에 염증이 있는 경우 uptake가 증가한다 Strashun⁹⁾ 등은 Tc-99m MDP bone scan과 Ga-67 citrate scan으로 악성외이도염의 조기진단과 경과추적이 가능하다고 하였다. 원인균은 *Pseudomonas aeruginosa*인 경우가 대부분이고 *psedomonas*와 다른균의 혼합감염이 배양검사상 초기에 동정되더라도 질환이 진행되면 *Pseudomonas*만 동정된다고 하였지만 *Proteus mirabilis*¹⁰⁾, *Aspergillus fumigatus*, *Proteus sp.*, *Klebsiella sp.*, *staphylococcus* 등이 단독으로 동정되는 경우도 보고되어 있다. 국내에서는 Lee¹¹⁾ 등이 *Proteus mirabilis*, An¹²⁾ 등이 *Staphylococcus aureus*에 의한 감염을 보고하였다. 저자들의 경우에는 균 배양검사상 *Enterococcus faecalis*가 검출되었고 *Peudomonas*는 볼 수 없었으며 치료후 23일째 부터는 배양검사서서 균이 동정되지 않았다.

악성외이도염의 치료는 당뇨병환자인 경우 혈당의 조절이 가장 중요하며 외이도의육아조직 제거 등의 국소 치료가 중요한 역할을 한다. 초기 악성 외이도염에서 국소항생제는 감염의 범위에 따라 결정해야 하는데 고실골의 염증이 있는 부위만을 제거하는 것만으로 충분하다. 안면신경 마비나 하부 뇌신경이 침범되었을 경우 두개저로의 침범이 의심되므로 유양돌기 삭개술이나 두개 저부의 부분적 절제술의 시행도 고려해야 한다. 고압산소 요법도 보조적 치료법으로 사용할 수 있는데 혐기성 환경을 줄임으로써 효과를 나타낸다. Linstrom¹³⁾ 등은 초기에 통증을 경감시킬 수 있으나 질환의 전체 경과에는 영향을 미치지 않는다고 하였고 Shupak¹⁴⁾ 등은 과민반응을 항생제의 사용에 제한이 있는 경우 성공적으로 이용할 수 있다고 하였다. 항생제는 초기에 충분한 양을 충분한 기간동안 투여해야 한다. 본 증례에서는 초기에 개인의 원에서 불충분한 항생제의 투여로 만성화 하였을 가능성을 생각할 수 있다. 최근의 몇몇 연구에는 ciprofloxacin의 경우 투여가 초기 악성 외이도염에 잘 반응한다고 보고하였으나 주치료는 tobramycin이나 gentamycin과 같은 aminoglycoside와

ticarcillin이나 carbenicillin과 같은 반합성 penicillin의 병합요법이다. Strauss⁹⁾ 등은 동물 실험에서 carbenicillin과 tobramycin의 병합요법이 *Pseudomonas aeruginosa*와 *Enterobacteriaceae*에 대하여 약물효과의 상승작용을 나타내어 좋은 치료방법이라고 보고하였다. 특히 tobramycin은 다른 aminoglycoside보다 높은 특이적 약리 작용을 보였고 7-10일 이상 사용하더라도 독작용이 적어 일차 선택 약제라고 하였으며 carbenicillin은 ticarcillin에 비해 2배의 효과가 있어 적은 용량을 사용할 수 있는 장점이 있다고 하였다. 악성 외이도염의 재발을 방지할 수 있는 충분한 항생제의 투여 기간은 논란이 있다. Chandler¹⁵⁾는 7일, Coser¹⁰⁾ 등은 2주, Joachims¹⁶⁾ 등은 3주간 치료기간을 제시하였으나 Uri¹⁷⁾ 등은 질병의 완전한 회복을 위하여 항생제의 정맥투여를 최소한 6주간 시행하는 것이 필요하다고 하였고 Strauss⁹⁾ 등은 7-8주간의 항생제의 정맥투여 외에 aminoglycoside를 유지 용량으로 수주간 근주하거나 carbenicillin을 경구투여하는 것이 임상적으로는 치료가 되었으나 심부에 잠재해 있는 악성외이도염의 재발방지를 위해 도움이 된다고 하였다. 본 증례에서는 초기에 개인 의원에서 충분한 기간동안의 항생제 투여가 되지않아 재발되고 만성화하였을 것이라고 생각된다. 재발방지를 위해서 본 병원에서는 입원후 7주이상의 항생제투여와 퇴원후에도 계속하여 항생제를 투여하고 있다.

치료의 종결여부의 결정은 통증이나 이주가 없고 적혈구 침강속도의 정상화, 균 배양검사서서 균이 동정되지 않는 점이 도움이 될 수있고⁹⁾ Simmon¹⁷⁾ 등은 Ga-67 citrate scan이 치료의 중단을 결정하는데 특이성이 있다고 하였다.

결 론

최근 저자들은 비교적 조절이 잘되는 당뇨병과 전신상태가 비교적 좋은 49세의 여자 환자로서 *Enterococcus faecalis*를 원인균으로 하고 6년이상 지속되는 만성경과를 취한 비전형적인 악성 외이도염 1례를 경험하였기에 이를 문헌적 고찰과 함께 보고하는 바이다.

References

- 1) Babiatzki A, Sade J. Malignant external otitis. *J Laryngol Otol.* 1987 ; 101: 205-10.
- 2) Mattucci KF, Setzen M, Galantich P. Necrotizing otitis externa occurring concurrently with epidermoid carcinoma. *Laryngoscope.* 1986 ; 96 : 264.
- 3) Strauss M, Corner GH, Aber PC, Baum S. Malignant External otitis : Long-term(Months) antibacterial therapy. *Laryngoscope.* 1982 ; 92 : 397-406.
- 4) Lucente FE, Praisier SC, Son PM. Complication of the treatment of malignant external otitis. *Laryngoscope.* 1983 ; 93 : 279-381.
- 5) Chandler JR. Pathogenesis and treatment of facial paralysis due to malignant external otitis. *Ann otol rhinol Laryngol.* 1972 ; 81 : 648-58.
- 6) Meyerhoff WL, Gates GA, Montalbo PJ. *Pseudomonas mastoiditis* Laryngoscope. 1977 ; 87 : 483-92.
- 7) Uri N, Kitzes R, Meyer W, Schuchman G. Necrotizing external otitis : The importance of prolonged therapy. *J Laryngol Otol.* 1984 ; 98 : 1083-5.
- 8) Gherini SG, Brackmann DE, Bradley WG. Magnetic resonance Imaging and computerized tomography in malignant external otitis. *Laryngoscope.* 1986 ; 96 : 542-8.
- 9) Strashum AM, Nejatheim M, Goldsmith SJ. Malignant external otitis Early scintigraphic detection. *Radiology.* 1984 ; 150 : 541-5.
- 10) Coser PL, Stamm AE, Pinto JA, Lobo RC. Malignant external otitis on infants. *Laryngoscope.* 1980 ; 90 : 312-6.
- 11) Lee WS, Choi HS, Lee JS, Hyun SJ. A case of malignant external otitis. *Korean J Otolaryngol.* 1988 ; 31 : 663-7.
- 12) An KH, Lee KS, Kim JH, Chu KC. Two case of malignant external otitis. *Korean J Otolaryngol.* 1995 ; 38 : 2088-92.
- 13) Linstrom CJ, Lucente FE. Infections of the external ear. In ; Bailey BJ, Johnson JT, Pillsbury HC, Kohut RI, Eugene Tardy M. *Head and neck surgery-otolaryngology* Philadelphia : J. B. Lippincott Company; 1993. p.1550-2.
- 14) Shupak A, Greenberg E, Hardoff R, Gordon C, Melamed Y, Meyer WS, et al. Hyperbaric oxygenation for necrotizing(malignant) otitis externs. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1989 ; 115 : 1470.
- 15) Chandler JR. Malignant external otitis : further considerations. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1977 ; 86 : 417-28.
- 16) Joachims HZ. Malignant external otitis in children. *Arch Otolaryngol.* 1976 ; 102 : 236-9.
- 17) Simmon CP, Lucente FE, Son PM, Hirshman SZ, Arnold LH, Roffman JD, et al. Nuclear scanning in necrotizing progressive malignant external otitis. *Laryngoscope.* 1982 ; 92 : 1016-20.