

유양동에 발생한 거대 콜레스테롤 육아종성 낭종 치험 1례

계명대학교 의과대학 이비인후과학 교실 및 의과학 연구소

안병훈 · 안재현 · 김종강

A Giant Cholesterol Granuloma Cyst of the Mastoid

Byung Hoon Ahn, M.D., Jae Hyoun Ahn, M.D., Joong Gahng Kim, M.D.

Department of Otolaryngology

Keimyung University School of Medicine and Institute for Medical Science,
Taegu, Korea

=Abstract=

Cholesterol granuloma is a rare lesion of the temporal bone and must be distinguished from epidermoid, cholesteatoma and other mass lesion of the temporal bone.

We report a case of a 34-year-old female who presented to our institution with left temporal headache with bloody otorrhea. Bony destructive lesion of posterior cranial fossa was shown in computed tomography. The cystic mass was found and completely excised by transmastoid approach. At operation, cystic fluid was found in the lesion and sent to laboratory for cytologic evaluation. The fluid was remarkable for numerous inflammatory cells, blood breakdown products, multinucleated giant cells and cholesterol crystals and squamous epithelial cells, fibrous connective tissue and glandular tissue was present. Postoperative condition of the patient was good and discharged in postoperative 9 days without any complications. The patient has been receiving treatment for the last 5 months on an out patient basis without recurrence. The authors report a case of cholesterol granuloma cyst which was developed on mastoid the first time without any previous history of surgery. The differential diagnosis and radiologic evaluation are discussed.

Key word:Primary cholesterol granuloma cyst, mastoid cavity

서 론

콜레스테롤 육아종은 1893년 Meyer에 의해
장간막에서 처음으로 기술되었고 종아에서는

1894년 Manasse에 의해 Foreign body giant cell
로 둘러싸인 콜레스테롤 crystal의 형태로 기술
된 것이 최초이며(Jon E. Isaacson & Aristides
Sismanis, 1893). 콜레스테롤 육아종성 낭종은

측두골에 생길 수 있는 낭종성 병변중의 하나로 대개는 추체부에 많이 생기며 유양동에 생기는 경우는 드문 것으로 알려져 있다.

또한 1985년 Palva 등, 1996년 Saito 등이 보고한 것처럼 대개는 술후에 발생한 경우이며 과거력상 수술병력이 없이 유양동에 일차적으로 거대 콜레스테롤 육아종성 낭종이 생기는 경우는 아주 드문 것으로 알려져 있다.

이에 저자들은 경유양동 접근법을 통해 종괴를 완전히 제거하고 고막에 환기관 삼관술을 시행받은 34세 여자환자에서 이전에 수술 병력 없이 일차적으로 유양동에 생겨 광범위한 골파괴를 일으켜 후두개와 경막이 일부 노출된 소견을 보인 거대 콜레스테롤 육아종성 낭종 1례를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

- 환자: 김 O숙 (34/F)
- 입원일: 1998년 2월 20일
- 주소: 8개월 동안의 좌측 측두 부위의 두통 및 혈성 이루
- 혼병력: 환자는 34세 여자로 약 8개월간의 좌측 측두 부위의 두통 및 이명과 함께 혈성이루를 보여 98. 1월 모 2차 병원 방문하여 측두골 컴퓨터 단층 촬영상 좌측 고실개에 골파괴 소견 보여 본원으로 전원 되었다.
- 과거력 및 가족력: 특기 사항 없음
- 전신소견: 전신상태는 양호하였으며 신체 타부위에서 특기할만한 이상소견은 없었다.
- 내원 당시의 진찰소견: 좌측 고막이 함몰되어 있었고 공기흡영이 보였으며 고막 천공이나 분비물은 관찰할 수 없었다.



Fig. 1. CT scan : Bony destructive lesion of posterior cranial fossa

- 임상 검사 소견 : 혈액, 뇌, 간기능검사, 흉부 X-선검사 및 심전도검사 등에서 이상 소견 을 보이지 않았다.
- 청력 검사 : 좌측에 경도의 전음성 난청을 보였다.
- 전산화 단층 촬영 : 2차 병원에서 촬영한 전 산화 단층 촬영상 좌측 중이와 유양동 및 유양동 합기 세포에 연부 조직이 차 있었 고 후두개와에 골파괴성 병변을 보였다 (Fig 1).
- 자기공명 영상 : 좌측 유양동 합기세포에 $2 \times 2 \times 2 \text{ cm}$ 크기의 다엽성의 종괴(Fig 2)를 볼수 있었고 외이나 중이강, 내이강에는 특이 소견이 없었으며, 뇌 실질도 특이 소견 없었으며 병소 부위는 T1 강조 영상과 T2 강조 영상에서 고음영으로 나타났고 (Fig 3), Gd-DTPA를 주입한후 실시한 T1 강조 영상에서 지방억제 소견을 보였다.
- 수술 방법 및 소견 : 환자는 1998년 2월 26 일 앙와위에서 기관내 삽관술에 의한 전신 마취를 시행하였다. 좌측 유양동 삭개술을 위한 일상적인 소독을 시행하였고, 1% lidocaine과 1:10만 epinephrine이 섞인 용액 을 후이개 피부 주름을 따라 이개 상방에 서 유양돌기 첨부까지 주사하였으며, 외이 도내 골-연골경계부의 약간 외측의 4군데 에 주사하였다. 후이개부위에서 피부 절개 를 시행하여 피하조직과 측두 전막까지 진 행하여 측두 전막을 채취하고 Palva flap을 만들고 유양동 표면을 노출시키고 표면 유 양동 절개술을 시행하여 경유양동 접근법 으로 종물에 접근하였는데 종물의 수술시 소견은 경막에 붙은 $2 \times 3 \times 1 \text{ cm}$ 크기의 낭 성 종괴(Fig 3)가 보였다.
- 종물을 제거하고 좌측 고막에 환기판 삽관 술을 실시하였고 노출된 후두개와는 측두

전막으로 재건하였으며 피하조직과 피부 를 봉합하였다.

- 별리 조직학적 소견 : 광학현미경하에서 많 은 염증세포 및 거대세포의 침윤, 혈액 분 해산물들과 콜레스테롤 결정체가 존재하 였으며 낭종의 낭벽에는 편평상피세포와 선조직 및 섬유성 결체조직이 존재하였다 (Fig 4).
- 치료 및 경과 : 수술후 결과는 양호하며 술 후 9일째 합병증 없이 퇴원하였으며 현재 까지 통원 관찰중이나 술후 5개월째 까지 재발없이 양호한 경과를 보이고있다.

고 찰

콜레스테롤 육아종성 낭종의 발생원인으로 는 환기장애, 배설장애, 출혈설등이 보고되고 있으며 이는 동물실험을 통해 콜레스테롤이나 그와 유사한 물질을 중이강에 주입하거나 환 기공을 차단함으로써 콜레스테롤 육아종을 유 발할 수 있다. Ojala(1957)와 Beaumont(1966) 은 병아리 상완골에서 환기공 (foramen pneumaticum)을 차단함으로써 Main(1970)은 squirrel monkey의 구씨관을 silastic sponge로 차단하여 콜레스테롤 육아종을 생성하였고 Friedmann(1959)은 기니아픽의 중이강내로 콜레스테롤 부유액을 주사함으로써, Dota(1963)등 은 1% oxalic acid를 가토의 중이강내로 주사함 으로써 콜레스테롤 육아종을 유발시켰다.

측두골에 생기는 콜레스테롤 육아종성 낭종 은 임상적으로 크게 세가지로 이야기 할 수 있 다. 만성중이염, 특히 진주종성 중이염의 육아 조직에서 나타나는 경우와 특발성 고실혈종의 형태로 나타나는 경우, 그리고 중이강, 유양동, 외이도 및 추체 첨부 등 측두골의 힘기화가 일 어나는 모든 부분에 종괴 양상으로 국소적으

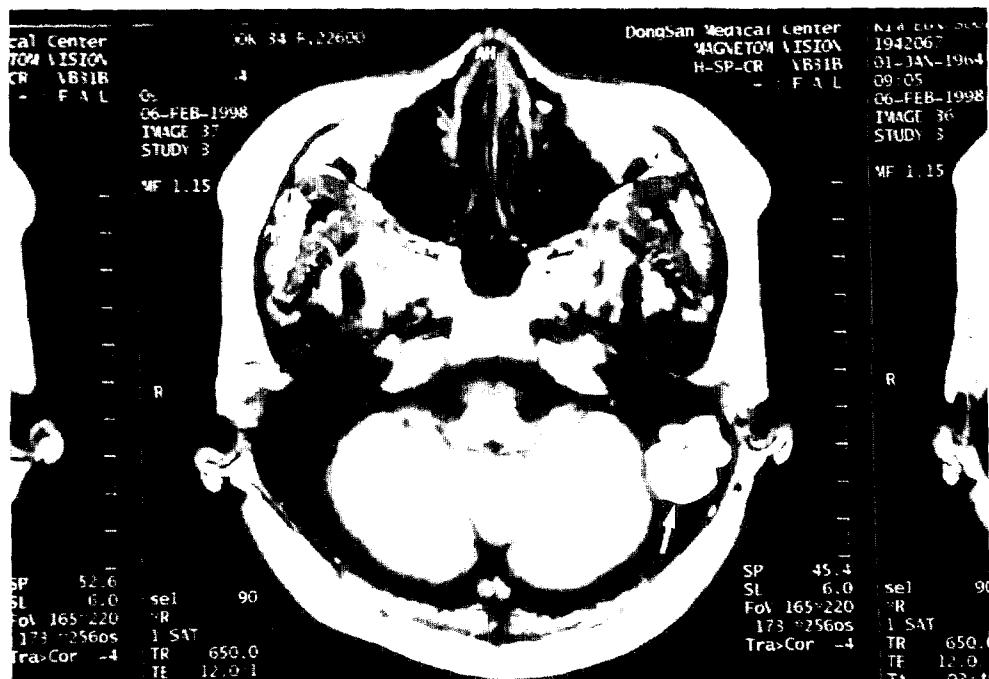


Fig. 2A. MRI scan(T1 weighted image) : multilobulated cystic mass.
The mass shows high signal intensity on T1 weighted image.



Fig. 2B. MRI scan(T2 weighted image)
The mass shows high signal intensity on T2 weighted image.



Fig. 3. $2 \times 3 \times 1$ cm sized cystic mass

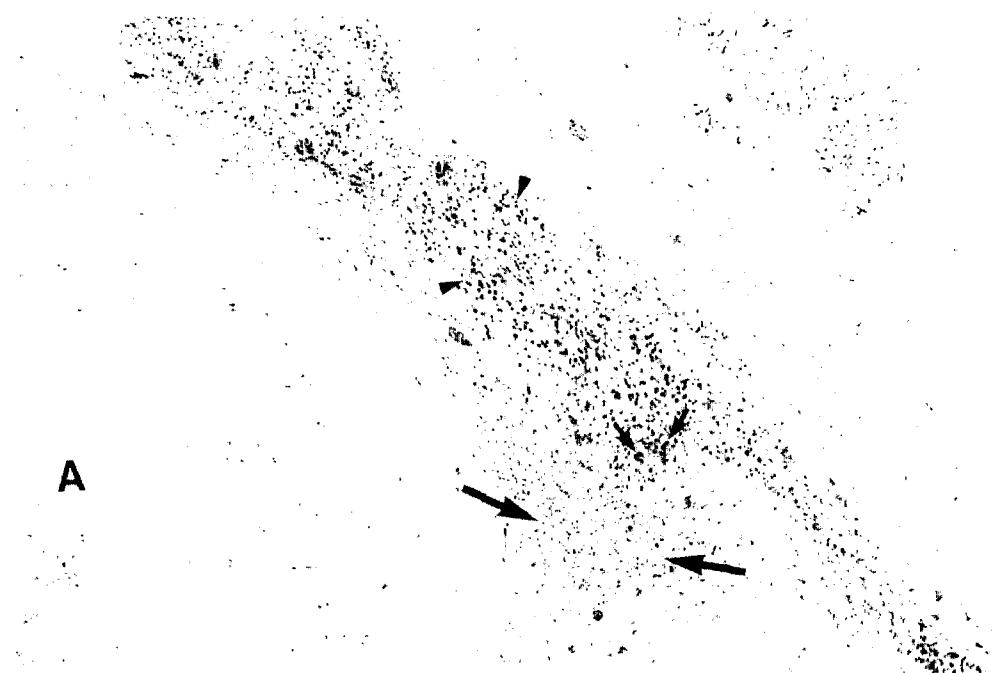


Fig. 4. Histologic examination : Remarkable for numerous inflammatory cells, multinucleated giant cells and blood breakdown products.

A : cystic cavity

small arrows: multinucleated giant cells

arrow heads: inflammatory cells

large arrows : blood breakdown products

로 나타나는 경우가 있을 수 있다. 만성 중이염 특히 진주종성 중이염과 관련이 있는 경우는 우리가 콜레스테롤을 육아종성 낭종을 가장 빈번하게 임상적으로 관찰할 수 있는 형태로 정상적인 합기세포의 체계가 억제된 것, 출혈과 더불어 콜레스테롤 결절에 대한 이물질 반응의 결과로 생각되어진다. 진주종이 유양동 합기세포의 환기를 막음으로써 음압을 형성함과 동시에 출혈을 야기시키고, 혈액성분에 대한 이물질 반응으로 염증변화를 일으켜 육아종을 형성하는 것이다.

특별성 고실혈종의 형태로서 특징적인 청색 혹은 암갈색의 고막소견을 보이며 이런 경우 대개는 고막의 천공 없이 발생한다 (윤태현 외, 1997). 이론적인 기전으로 이관의 폐쇄와 이에 따른 혈관의 확장에 의한 파괴, 중이강내로의 출혈, 용혈현상과 콜레스테롤의 축적등을 들 수 있다. Paparella와 Lim(1967)은 병리학적인 변화가 서로 동일하다는 점을 들어 특발성 고실혈종과 삼출성 중이염이 서로 동일 질환이라 주장하였으나 하나의 독립된 질환으로서의 가능성을 제시한 보고도 있다 (박기현 외, 1994).

국소적 형태로 나타나는 경우로 만성 중이염 없이 중이강이나 유양동 또는 외이도에서 육아종의 형태로 관찰되거나 측두골의 추체첨부 및 유양동에서 낭종형태로 관찰되는 경우이다. Plester(1982)는 콜레스테롤 육아종성 낭종이 골흡수를 일으킨다는 증거가 없다고 보고하였으나 House와 Brackmann(1982)은 콜레스테롤 육아종성 낭종에 의한 고실의 확대 및 주위골의 흡수를 관찰하였으며 Nager(1976)도 측두골의 광범위한 파괴를 일으킨 환자를 보고한 경우가 있어 이런 경우 골병변을 일으킬 수 있는 측두골의 다른 질환과 감별을 해야 할 것으로 사료되며 본 중례는 이 경우에 해당되는 것

으로 생각된다.

콜레스테롤 육아종성 낭종을 유발하는 콜레스테롤 결정의 근원(source)에 대해서는 출혈 후 적혈구 세포막에서 유리된 콜레스테롤이 결정의 형태로 침전된 것이라는 견해가 지배적이다 (Friedmann, 1959; Gray *et al*, 1985; Butler, 1989). 이러한 콜레스테롤은 적혈구 세포막이나 HDL-2 및 자유부유형태로 존재하며 비용해성으로 배설장애나 저산소증이 있는 경우 특히 결정 형태로 침전하게 된다. Havaside *et al*(1984)은 혈장과 콜레스테롤 육아종간의 지질(lipid)에 대한 정량적, 정성적 분석을 시행하여 혈청(serum)이 콜레스테롤의 근원이라 하였으나 만성염증반응에 의해 생성된 염증성 육아종이 분해되는 과정에서 콜레스테롤 결정이 발생한다는 보고도 있다 (Dota *et al*, 1963; Sade, 1980; Niho, 1986).

임상적 양상으로는 발생부위나 그 정도에 따라 다양한 증상을 나타내며 측두골에 생긴 경우에는 한쪽에 국한된 난청, 이명, 안면신경마비, 혼훈등이 있으나 특이증상은 없는 것으로 알려져 있다 (Gatland *et al*, 1988; Gunes *et al*, 1988; Butler & Grossenbacher, 1989). Rothschild *et al*(1997)는 불명열의 원인으로 콜레스테롤 육아종성 낭종을 보고하였으며 이러한 지속적인 열(fever)의 원인으로 중추신경계의 침범 가능성을 생각하고 있다 (1990, Pelton).

육안적으로 혈철소 침착(갈색), 지방(노란색), 콜레스테롤 결절(광택) 등으로 인해 노란색의 광택을 보이는 종괴로 나타나며 출혈의 정도에 따라 회녹색, 회갈색으로 보일 수도 있다 (Gray *et al*, 1985; Gunes *et al*, 1988; Butler & Grossenbacher, 1989). 병리조직학적으로는 foamy cytoplasm을 가진 이물거대세포가 콜레스테롤 결정을 둘러싸고 있는 양상을 보이고 주위에 만성 염증세포의 침윤 및 섬유화, 출혈

등이 관찰되며, 진주종과는 달리 표면은 섬유성 결체조직으로 구성되고 각질화된 편평상피는 관찰되지 않는다.

진단을 위한 방사선 검사로는 단순촬영, 전산화단층촬영, 자기공명영상 등을 시행하는데 단순촬영상 연조직 음영의 증가, 부비동의 혼탁(opacity), 주위 골조직의 경화성 변화등이 관찰될 수 있으나 확진에 도움을 주지 못하며 (Milton & Bickerton, 1986; Butler & Grossenbachner, 1989) 전산화단층촬영상(CT) 뇌와 비슷한 음영의 종괴로 나타나고 자기공명영상(MRI)에서는 T1, T2 영상에서 모두 고음영(high signal density)을 나타내어 T2에서만 고음영을 보이는 진주종과는 쉽게 감별이 가능해 콜레스테롤 육아종성 낭종의 특이 진단에는 MRI가 CT보다 우수한 것으로 알려져 있다. 이 외에 감별해야 할 질환으로는 점액낭종, 부비동내 용종(polyp), 저류낭종, 뇌헤르니아(Baron, 1969), 고실사구종, 안면신경종, 혈관기형 등이 있다.

치료는 수술적 요법으로 원인적 병소 제거와 함께 배출술(drainage operation)이 권유되고 있다. 추체첨부의 콜레스테롤 육아종성 낭종은 완전절제가 어려운 경우가 많으며 또한 종괴 자체가 주위조직으로 확장하는 데가 드물고 대부분의 경우 무해성으로 근치적적출술 보다는 배출술이 권장된다(Brodie & Chaurasia, 1985; Gamache *et al*, 1988; Gherini *et al*, 1985).

하지만 유돌봉소에 생긴 콜레스테롤 육아종성 낭종은 근치적적출술이 가능한 경우가 많다. 따라서 영구적인 환기유지가 가능한 경우에는 낭종 제거후 유양동폐쇄술이 필요하지 않지만 재발가능성이 있는 경우에는 낭종의 완전제거와 함께 유양동 폐쇄술이 필요하다.

결 론

저자들은 약 8개월 동안의 좌측 측두골 부위의 두통 및 혈성 이루로 내원하여 경유양동 접근법을 통해 종괴를 완전히 제거하고 고막에 환기관 삼관술을 시행받은 후 조직검사상 콜레스테롤 육아종성 낭종으로 확진받은 35세 환자에서 이전의 수술 병력 없이 유양동에 생겨 광범위한 골파괴를 일으켜 후두개와 경막이 일부 노출된 거대 콜레스테롤 육아종성 낭종 1례를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 김효준, 윤태현 : 고막 천공 없이 발생한 콜레스테롤 육아종. 대한이비인후과학회지 1997; 40:271-276.
- 민양기, 정하원, 유원석, 김익태 : 접형동에 발생한 콜레스테롤 육아종. 대한이비인후과학회지 1991;34:1237-1241.
- 박기현, 정명현, 조정일, 지장훈 : 특발성 고실 혈증의 임상분석. 대한이비인후과학회지 1994;37:38-43.
- 이철웅, 강성호, 박철원, 이형석 : Cholesterol 육아종성 낭종 치험 1례. 대한이비인후과학회지 1991;34:371-375.
- 임상빈, 박기현, 이제선, 염주현 : 특발성 고실 혈증 4례. 대한이비인후과학회지 1989;32: 1157-1163.
- 장철호, 왕원기, 이정현 : 특발성 고실혈증. 임상이비인후과 1992;3:273-279.
- 조성래, 이광선 : 청색 고막에 대한 임상적 연구. 대한이비인후과학회지 1996;39:1144-1150.
- Baron SH : Herniation of the brain into the mastoid cavity : postsurgical, postinfectious or

- congenital. *Arch Otolaryngol* 1969;90:779-785.
- Beaumont GD : The effects exclusion of air from pneumatized bones. *J Laryngol Otol* 1989;80: 236-249.
- Brodie SW, Chaurasia MK : A rare intracranial complication of cholesterol granuloma. *The Journal of Laryngology and Otology* 1985;99: 491-495.
- Butler S, Grossenbacher R : Cholesterol granuloma of the paranasal sinuses. *The Journal of Laryngology and Otology* 1989;103:776-779.
- Dota T, Nakamura K, Saheki M : Cholesterol granuloma : Experimental observations. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1963;72:346-356.
- Ferlito A, Devaney KO, Rinaldo A, et al. : Clinicopathological consultation : Ear cholesteatoma versus cholesterol granuloma. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1997;106:79-85.
- Friedmann I : Epidermoid cholesteatoma and cholesterol granuloma : Experimental and human. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1959;68:57-79.
- Gamache FW, et al : Bilateral cholesterol granuloma of the skull base : Case report and review of the literature. *Nerurosurgery* 1988;22:1098-1101.
- Gatland DJ, Youngs RP, Jeferey IJM : Cholesterol granuloma of the maxillary antrum. *J Otolaryngol* 1988;177:131-133.
- Gherini SG, Braokmann DE, Lo WWM, et al : Cholesterol granuloma of the petrous apex. *Laryngoscope* 1985;95:659-664.
- Goldofsky E, Hoffman RA, Holliday RA, Cohen NL : Cholesterol cysts of the temporal bone : Diagnosis and Treatment. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1991;100:181-187.
- Gray WC, Saleman M, Hafiz MA, et al : Cholesterol granuloma of the petrous apex and sphenoid sinus : A case report. *Neurosurgery* 1985;177:67-69.
- Gunes HA, Almac A, Canbay E : Cholesterol granuloma fo the maxillary antrum. *The Journal of Laryngology and Otology* 1988;102:630-632.
- Hayashida T, Iwamori M, Kitsuwa T, et al : Biochemical study of cholesteatoma and cholesterol granuloma-Occurrence of cholesterol in the tissues of cholesteatoma *Oto-Rhino-Laryngology and its Related Specialities* 1984;46:242-247.
- House JL, Brackmann DE : Cholesterol granuloma of the cerebellopontine angle. *Arch Otolaryngol* 1982;108:504-506.
- Milton CM, Bickerton RC : A review of maxillary sinus cholesterol granuloma. *British Journal of Oral and Maxillofacial Surgery* 1986;24:293-229.
- Nager GT, Venderveen TS : Cholesterol granuloma involving the temporal bone. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1976;85:204-209.
- Ojala L : Pneumatization of the bone and environmental factors ; Experimental studies on chick humerus. *Acta Otolaryngol* 1957;133:1-28.
- Palva T, Lehtoto VP, Johnsson LG : Large cholesterol cysts in the mastoid. *Arch Otolaryngol* 1985;111:786-791.
- Paparella MM, Lim DJ : Pathogenesis and pathology of the "idiopathic" blue ear drum. *Arch Otolaryngol* 1967;85:249-258.
- Pelton SI. Fever of unknown origin. In : Stockman JA III, ed. *Difficult Diagnosis in Pediatrics*. Philadelphia, WB Saunders, 1990, pp 175-182.
- Plester D, Steinbach E : Cholesterol granuloma. *Otolaryngol Clin North Am* 1982;15:665-672.

- Rothschild M, Berger I, Lew S, Ophir D : Pathological case of the month ; Cholesterol granuloma as a cause of fever of unknown origin. *Arch Pediatr Adolesc Med* 1997;151:951-952
- Sade T, Halevy A, Klajman A, et al : Chole-sterol granuloma. *Acta Otolaryngologica* 1980;89:233-239
- Saito T, Ohtsubo T, Seki M, Saito H : Imaging case study of the month ; Postoperative cholesterol cysts of the mastoid. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1996;105:922-925.