

## 측두하악관절을 침범한 악성 외이도염의 치험례

변인영 · 김진홍 · 강상훈 · 김문기

국민건강보험공단 일산병원 구강악안면외과

**Abstract** (J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011;37:535-8)

### Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report

In-Young Byun, Jin-Hong Kim, Sang-Hoon Kang, Moon-Key Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, National Health Insurance Corporation Ilsan Hospital, Goyang, Korea

Malignant otitis externa (MOE) originates as inflammation of the epidermis in the external auditory canal, and spreads to the surrounding structures and neck, leading to abscess formation. MOE is associated with an immunosuppressive condition and diabetes. Patients with MOE suffer from otalgia, otorrhea and hearing loss. According to the literature, surgery to the temporomandibular joint is controversial as the treatment of choice.

**Key words:** Otitis externa, Temporomandibular joint

[paper submitted 2011. 8. 31 / revised 2011. 11. 2 / accepted 2011. 11. 23]

## I. 서 론

악성 외이도염(malignant otitis externa)은 진성 악성 종양은 아니지만 그 임상 양상이 매우 침습적이며 치료가 어렵고 항생제 사용 이전 시기의 사망률이 50%에 이르러 붙여진 병명이다<sup>1,2</sup>. 그 원인은 외이도 연조직 감염으로부터 시작하며 점차 진행되어 두개저, 안면신경, 삼차신경, 시신경, 부비동 및 측두하악관절까지 이환될 수 있다. 임상 증상으로는 이통, 이루, 두통, 턱관절 통증 등을 호소하며, 심한 경우 안면 신경 마비가 나타나기도 한다.

악성 외이도염은 면역이 저하된 환자에서 주로 나타나며, 특히 당뇨병을 앓고 있는 환자에서 주로 발생하는 것으로 알려져 있다<sup>3-5</sup>. 당뇨병에 이환된 환자는 다형백혈구 및 단핵구, 대식세포 등의 화학주성 및 식균작용이 약하여 악성 외이도염의 원인균의 감염에 취약하게 된다. 원인균으로는 *Pseudomonas aeruginosa*가 주로 알려져 있으나 이외 다른균주들도 검출되며 대부분 진성 병원균이기보다는 단순 집락 형성 세균으로 생각되고, 인체 면역 결핍 바이러스 감염자와 같은 면역결핍 환자의 경우 진균 감염이 나타나기도 한다<sup>6</sup>. 질병의 진행 과정은 표피 감염이 진피층까지 퍼져 급만성 염증성 반응이 야기되어 이러한 감염이 두개저로 전파되며, 두개외로 전파되면 측두하와(infratemporal fossa), 이하선 및 경부까지 이환되기도 한다<sup>7</sup>. 일반적으로 편측성으로 나타나나 두개저의 골수염이 반대편으로 전파되어 경추를 이환시킬 수도 있다<sup>8</sup>.

## II. 증례보고

72세 여인이 우측 귀 주변 및 턱관절 부위가 아프다는 주소로 2010년 8월 12일 본과에 내원하였다. 2009년 8월 이통으로 본원 이비인후과에 내원하여 외이도염 가진 하에 항생제 요법을 시행받다가 증상의 호전이 없어 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 촬영 후 악성 외이도염으로 진단받았다. 질환의 침범양상이 매우 공격적이어 악성 종양과의 감별을 위해 타 병원 이비인후과로 의뢰되어 약물치료를 시행받았다. 3주 간의 입원 치료 후에도 증상이 호전되지 않고 오히려 악화되었으며, 턱관절 통증이 극심하여 본과에 내원하였다.

환자는 고혈압, 당뇨, 말기 신질환의 전신질환을 가지고 있었으며, 이로 인해 정기적인 혈액 투석을 시행받고 있었다. 구강 내 상태는 상하악 무치악에 총의치 장착 상태였으며, 이학 검사에서 우측 귀 주변 및 턱관절 부위 통증을 호소하였으나 이루나 개구 장애는 없었다. 본과에 내원하기

### 김 문 기

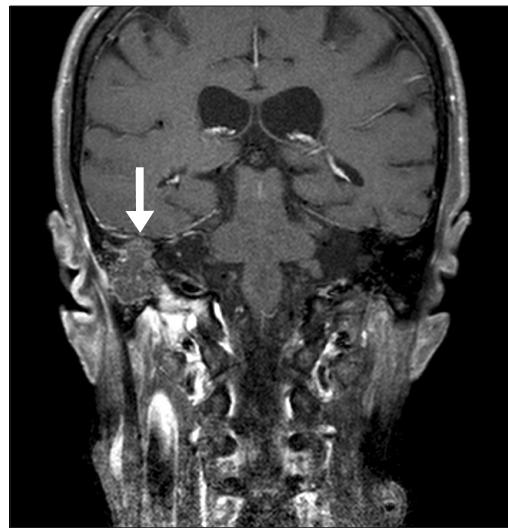
410-719 고양시 일산동구 일산로 100  
국민건강보험공단 일산병원 구강악안면외과

### Moon-Key Kim

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,  
National Health Insurance Corporation Ilsan Hospital  
100, Ilsan-ro, Ilsandong-gu, Goyang 410-719, Korea  
TEL: +82-31-900-0623 FAX: +82-31-900-0622  
E-mail: ilsanoms@gmail.com

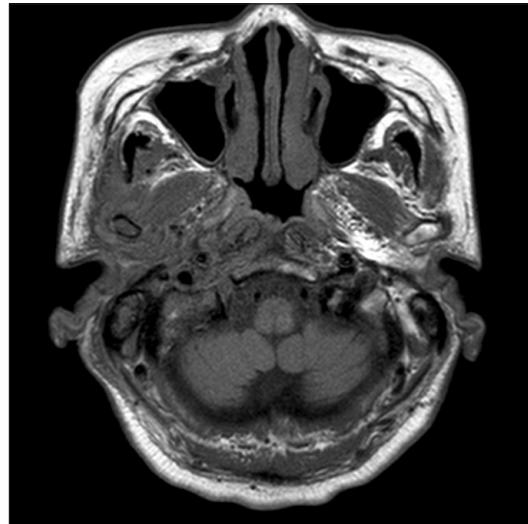
전 시행한 안면부 MRI 소견에서 과두형태와 근육 부착 등 정상 주위 조직 소견을 보이는 좌측 측두하악관절에 비해 우측 측두하악관절은 골수부위의 신호 변화 양상을 보이며 그 주위로 두텁게 변화된 연조직이 둘러싸고 있었다.(Fig. 1) T2 강조 이미지에서는 우측 꽈지별집(mastoid air cell) 내 심한 삼출이 의심되는 소견을 보였다.(Fig. 2) 가돌리늄 조영 이미지상에서 종괴형 병변이 두개저를 침식하는 양상으로 측두골 내에 자리잡고 있는 것이 관찰되었다.(Fig. 3) 파노라마 영상에서는 우측 과두 후방으로 피질골 연속성이 상실되어 있었다.(Fig. 4) 본과에서 시행한 측두하악관절 MRI 상 좌측 측두하악관절은 정상 관절 원판 형태를 보이는 반면(Fig. 5. A), 우측 측두하악관절은 두터운 연조직이 관절강 내 자리잡고 있었다.(Fig. 5. B)

이에 악성 외이도염과 연관된 우측 측두하악관절 부위의



**Fig. 3.** Preoperative gadolinium-enhanced magnetic resonance image. Mass-like lesion (arrow) in right temporal bone invaded skull base.

In-Young Byun et al: Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



**Fig. 1.** Preoperative T1-weighted magnetic resonance image (MRI). MRI shows thick soft tissue surrounding right condylar head.

In-Young Byun et al: Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



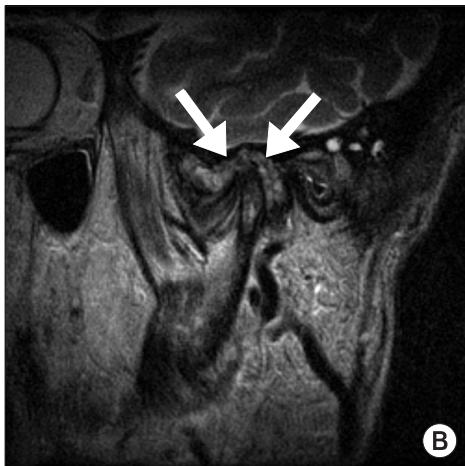
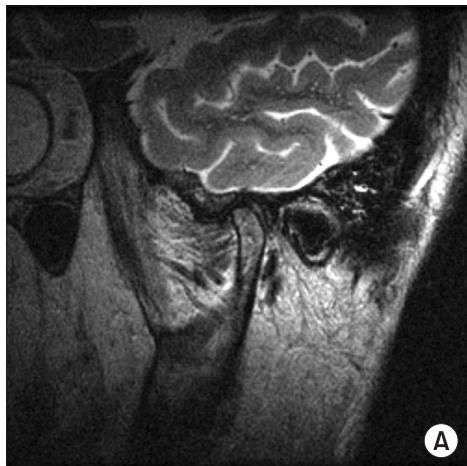
**Fig. 4.** Preoperative panoramic image. Cortical discontinuity in posterior border of right condylar head was note (arrow).

In-Young Byun et al: Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



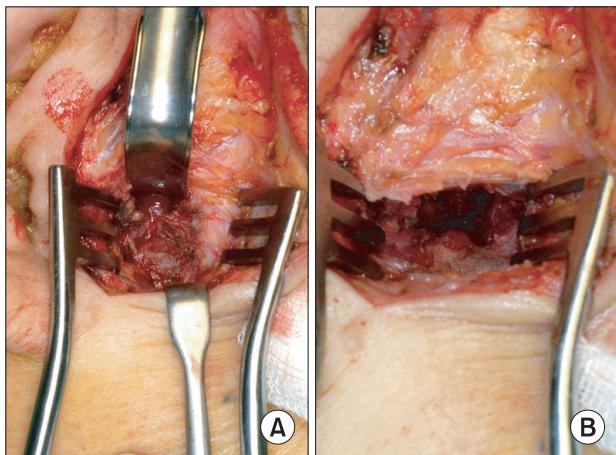
**Fig. 2.** Preoperative T2-weighted magnetic resonance image. Right mastoid air cells were filled with fluid contents (arrows).

In-Young Byun et al: Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



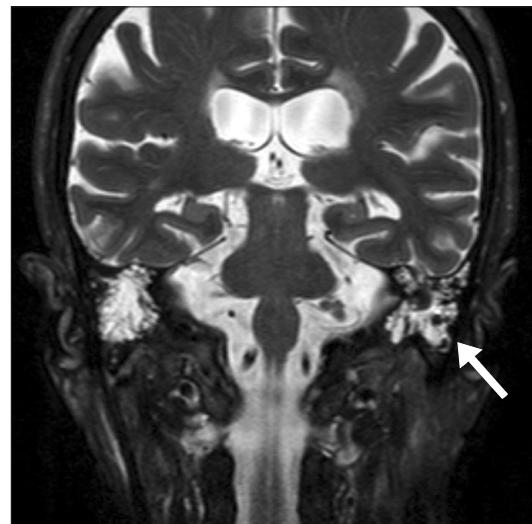
**Fig. 5.** Preoperative temporomandibular joint magnetic resonance images. A. Left temporomandibular joint: normal structure. B. Right temporomandibular joint: joint cavity was filled with thick soft tissue (arrows).

In-Young Byun et al: Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



**Fig. 6.** Intraoperative photographs. A. Joint cavity was filled with inflammatory tissue. B. After inflammatory tissue removal: posterior surface of the condylar head was eroded.

In-Young Byun et al: Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011



**Fig. 7.** Postoperative T2-weighted magnetic resonance image. Mastoiditis (arrow) was newly developed in left mastoid air cell compared to previous study.

In-Young Byun et al: Temporomandibular joint involvement in malignant otitis externa: a case report. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2011

골관절염으로 가진하고 병소에 대하여 악관절성형술을 동반한 염증조직의 제거 및 소파술을 시행하였다. 술 중 관찰소견에서 관절강 내부는 염증조직으로 가득 차 있었으며 관절원반 또한 정상 구조를 상실하여 뚜렷이 구분되지 않은 상태로 잔존된 일부로 생각되는 구조만 발견되었다.(Fig. 6. A) 염증 조직을 충분히 제거한 후 노출된 하악 과두 후방으로 피질골의 침식소견이 관찰되었다.(Fig. 6. B)

제거된 염증조직의 병리학적 소견은 골표면으로 부착된 섬유성 급만성 염증으로 진단되었으며, 술 중 시행한 관절강 내 세균배양 결과는 음성이었으나 수술 전후 시행한 외이도의 세균배양 결과 methicillin-resistant *Staphylococcus aureus*가 검출되어 감염내과 협의 진료 하에 항생요법을 시행하였다. 술 후 턱관절 부위의 통증은 일시적으로 감소하였으나 심한 양측성 두통을 호소하였다. 이비인후과에서 시행한 술 후 2개월째 MRI에서 우측에 잔존한 측두골 부위

염증과 별도로 좌측 꼭지별집 내 새로운 염증 소견이 발견되었다.(Fig. 7) 술 후 6개월째에 환자 내원 시 우측 측두하악관절의 통증은 사라졌지만 좌측 측두하악관절의 통증과 이통을 호소하였다. 술 후 1년째에 촬영한 MRI 소견에서 양측 꼭지염(mastoiditis)의 더 이상의 변화 소견은 없었다. 현재 환자는 본원 이비인후과에서 정기적인 경과관찰 중으로, 더 이상의 측두하악관절 부위의 통증은 없으나 지속적인 좌측 이통으로 통증 조절을 받고 있다.

### III. 고 찰

악성 외이도염의 치료에 있어 가장 중요한 것은 당뇨와 그 합병증의 조절이다. 병소에 대한 수술은 일반적으

로 추천되지 않으나 국소적인 염증조직 제거와 세균배양은 필요하다. 일반적으로 penicillin, ciprofloxacin, 3세대 cephalosporin 등의 항생제 요법으로 치료를 진행하며, 치료 시 사망률을 0-15%까지 줄일 수 있다<sup>9</sup>. 중두개와(middle cranial fossa)와 대후두공(foramen magnum)이 이환된 경우나 *Aspergillus* 감염의 경우, 그리고 안면마비가 나타난 경우에는 그 예후가 불량하다<sup>10,11</sup>.

문헌에 따르면, 측두하악관절의 외과적 조직 제거술은 아직 논쟁의 여지가 있다. 외과적 처치 없이 장기간의 항생제 요법이 같은 결과를 가져올 수도 있으며, 관절세척술과 같은 비침습적 치료가 추천되기도 한다<sup>12</sup>. 그러나 관절강 내에 농양이 형성되거나, 관절와나 과두의 광범위한 골파괴가 관찰되는 경우에는 외과적 치료가 추천된다<sup>13</sup>.

일반적인 경우 악성 외이도염이 측두하악관절을 이환하였을 때 보존적 치료가 우선적으로 시행되지만, 이번 증례의 경우 파노라마 영상에서 하악 과두 후방 피질골상 침식 소견을 보였으며 MRI에서 관절강 내의 염증소견이 뚜렷하였고 환자가 병소 부위의 극심한 통증을 지속적으로 호소하는 등 질병의 진행을 멈추고 증상을 완화시킬 처치가 필요하였다. 외과적 수술이 근본치료는 아니라 할지라도 통증에 대한 대증적 처치가 될 수 있으며 공격적인 질병의 진행으로 인한 측두하악관절의 골파괴를 자연시킬 수 있으리라는 가정 하에, 환자 및 보호자에게 수술 후에도 완치가 어려울 수 있으며 증상이 지속될 가능성을 주지시키고 동의하에 수술을 시행하였다. 수술 결과 내원시 주소였던 우측 턱관절의 통증은 해소되었다.

이번 증례에서 환자는 이환된 턱관절과 귀의 지속적인 통증을 호소하였으며, 수술 시 측두하악관절 부위에 대한 염증조직의 제거 및 소파술을 시행하였으나 이환된 꼭지별집 부위에 대하여는 외과적 처치를 시행하지 않았음에도 불구하고 수술 후 증상의 완화를 보였다. 악성 외이도염 환자에 대한 수술적 처치의 득실과, 그 외의 치료 방법에 대하여 계속적인 논의가 필요할 것이다.

## References

- Chandler JR. Malignant external otitis. *Laryngoscope* 1968;78: 1257-94.
- Nadol JB Jr. Histopathology of *Pseudomonas* osteomyelitis of the temporal bone starting as malignant external otitis. *Am J Otolaryngol* 1980;1:359-71.
- Naghibi M, Smith RP, Baltch AL, Gates SA, Wu DH, Hammer MC, et al. The effect of diabetes mellitus on chemotactic and bactericidal activity of human polymorphonuclear leukocytes. *Diabetes Res Clin Pract* 1987;4:27-35.
- Geerlings SE, Hoepelman AI. Immune dysfunction in patients with diabetes mellitus (DM). *FEMS Immunol Med Microbiol* 1999;26:259-65.
- Driscoll PV, Ramachandru A, Drezner DA, Hicks TA, Schaffer SR. Characteristics of cerumen in diabetic patients: a key to understanding malignant external otitis? *Otolaryngol Head Neck Surg* 1993;109:676-9.
- Slattery WH 3rd, Brackmann DE. Skull base osteomyelitis. Malignant external otitis. *Otolaryngol Clin North Am* 1996;29:795-806.
- Bernheim J, Sade J. Histopathology of the soft parts in 50 patients with malignant external otitis. *J Laryngol Otol* 1989;103:366-8.
- Singh A, Al Khabori M, Hyder MJ. Skull base osteomyelitis: diagnostic and therapeutic challenges in atypical presentation. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2005;133:121-5.
- Narozny W, Kuczkowski J, Stankiewicz C, Kot J, Mikaszewski B, Przewozny T. Value of hyperbaric oxygen in bacterial and fungal malignant external otitis treatment. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2006;263:680-4.
- Franco-Vidal V, Blanchet H, Bebear C, Dutronc H, Darrouzet V. Necrotizing external otitis: a report of 46 cases. *Otol Neurotol* 2007;28:771-3.
- Kwon BJ, Han MH, Oh SH, Song JJ, Chang KH. MRI findings and spreading patterns of necrotizing external otitis: is a poor outcome predictable? *Clin Radiol* 2006;61:495-504.
- Babiatzki A, Sadé J. Malignant external otitis. *J Laryngol Otol* 1987;101:205-10.
- Mardinger O, Rosen D, Minkow B, Tulzinsky Z, Ophir D, Hirshberg A. Temporomandibular joint involvement in malignant external otitis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2003;96:398-403.