

A Case of Unexpected Cotton Swap Foreign Body in the Ear Canal Causing Otogenic Skull Base Osteomyelitis

Sang Won Nam, Duk Rim Kim, Hyung-Jong Kim and Sung Kwang Hong

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Hallym University College of Medicine,
Hallym University Sacred Heart Hospital, Anyang, Korea

외이도 이물에 의해 발생한 두개저 골수염 1예

남상원 · 김덕림 · 김형중 · 홍성광

한림대학교 의과대학 성심병원 이비인후-두경부외과학교실

Received September 15, 2012

Revised October 15, 2012

Accepted October 15, 2012

Address for correspondence

Sung Kwang Hong, MD
Department of Otorhinolaryngology-
Head and Neck Surgery,
Hallym University
College of Medicine,
Hallym University
Sacred Heart Hospital,
22 Gwanpyeong-ro 170beon-gil,
Dongan-gu, Anyang 431-070,
Korea
Tel +82-31-380-3041
Fax +82-31-386-3860
E-mail skhong96@hallym.ac.kr

Otogenic skull base osteomyelitis (SBO) is a rare but life threatening disease, usually originating from a preceeding infection of the ear canal. It occurs dominantly in the elderly with diabetes or immunocompromised patients. However, foreign bodies in the ear canal may be a contributory factors causing otogenic SBO in healthy subjects. We describe a case of a previously healthy 51-year-old man, who was diagnosed with otogenic SBO after a physical exam and MRI scan. The patient complained of progressive otalgia lasting for one year and facial palsy that occurred three days before the visit. During the hospital course, an unexpected cotton swab was found in the ear canal. This was highly suspected as the main cause of otogenic SBO because, in the course of careful history taking, the patient remembered clearly that the cotton part of a cotton swab broke off in his ear a year ago. This case suggests that attention should be paid to high index suspicious foreign bodies in healthy subjects who are diagnosed with otogenic SBO, and extensive history taking and physical exam should be directed to this area.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2012;55:732-5

Key Words Ear canal · Foreign body reaction · Osteomyelitis · Skull base.

서 론

이성두개저 골수염(otogenic skull base osteomyelitis, OSBO)은 드물지만 면역억제 환자나 당뇨를 가진 노인층에서 발생하는 치명적인 질환으로 알려져 있다.¹⁾ 이성두개저 골수염을 일으키는 가장 흔한 균은 녹농균(*pseudomonas aeruginosa*)이고, 현재까지 보고된 이성두개저 골수염 환자의 대부분이 고령의 당뇨병 환자나 그 외에 HIV/AIDS를 포함한 면역억제, 항암화학요법 후 발생한 골수이형성증, 만성백혈병, 림프종, 비장 절제술 등의 병력을 가졌다는 것은 녹농균을 비롯한 세균에 대한 환자측 요인의 감수성 증가에 의해 발생한다는 병리학적 가설을 뒷받침하는 중요한 사실이다.

저자들은 최근에 건강한 성인에서 안면신경마비와 이루를 주소로 내원하여 이성두개저 골수염으로 진단된 환자의 외이도 연골-골 접합부위에서 주변조직과 심하게 유착된 이물(면봉솜) 발견하여 이 증례의 임상적 의미를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

51세 남자로, 내원 3일 전부터 시작된 House-Brackmann grade IV의 좌측 안면신경마비로 본원 외래에 내원하였다. 환자는 1년 전부터 발생한 좌측 이통과 간헐적인 이루가 최근 2개월 전부터는 심해졌다고 진술하였고 심한 두통이 동반되었다고

하였다. 과거력에서 고혈압 외에 면역저하를 의심할 만한 기타 소견은 없었다. 우측 고막과 외이도는 정상 소견을 보였으나 좌측에는 외이도를 가득 채우고 있는 육아조직이 관찰되어(Fig. 1) 악성외이도염과 병발된 이성두개저 골수염 의심하에 입원치료를 시작하였다. 입원시 시행한 자기공명영상에서는 좌측 외이도에 1 cm 가량의 농양이 관찰되었고 좌측 측두골 및 인접한 경막(dura mater), 난원공(foramen ovale), 부인두공간(parapharyngeal space)까지 관찰되는 조영증강 소견을 보여 이성두개저 골수염으로 진단되었다(Fig. 2). 외이도 이루 세균배양 검사에서는 녹농균이 검출되어 3세대 세팔로스포린인 Ceftazidime으로 치료를 시작하였으며, 이후에 감염내과 협진하에 4세대 세팔로스포린인 Cefepim으로 교체하였다. 외이도의 조직검사는 육아조직으로 보고되었다. 뇌수막염과의 동반 여부를 감별하기 위해 뇌척수액 검사를 시행하였으나 중추신경계 감염을 의심할 만한 소견은 보이지 않았다. 환자의 안면신경전

도 검사에서 좌측의 안면신경 변성도는 86%로 확인되었다. 환자는 입원 2일째 외이도의 소독 도중 외이도와 심하게 유착된 이물을 발견하여 제거하였고, 이는 면봉의 솜으로 확인되었다(Fig. 3). 다시 자세히 문진을 한 결과 환자는 1년 전 사우나 후 면봉이 귀에 들어간 적이 있었으나 제거하지 않았으며 이후 지속적인 이통과 이루가 있었던 것으로 확인되었다.

이루에 대한 드레싱 외에 추가적인 외이도 염증조직 제거는 시행하지 않았음에도 불구하고 입원 4일째 환자의 두통과 이통은 급속하게 호전되었고 입원 7일째 환자의 외이도 부종은 거의 호전되어 고막을 관찰할 수 있었으며, 이루는 더 이상 관찰되지 않았다. 치료효과 판정을 위해 입원 14일째 시행한 측두골 자기공명영상에서 좌측 외이도와 부인두공간의 염증소견이 현저하게 호전되었고 혈액검사에서 ESR과 CRP값이 입원시에 19 mm/hr, 9.26 mg/L에서 치료 후 3 mm/hr, 1.23 mg/L로 정상범위 이내로 호전되었다. 임상적으로는 이통 및 두통

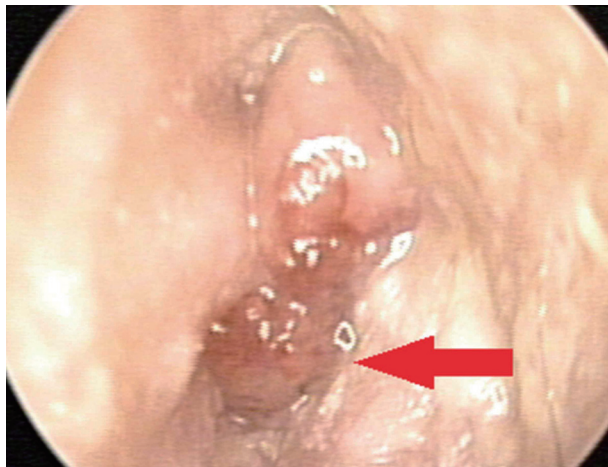


Fig. 1. Excessive granulation tissue (arrow: cotton swap) filling left ear canal at the bony-cartilage junction.



Fig. 3. Cotton part of cotton swap foreign body removed from external auditory canal.

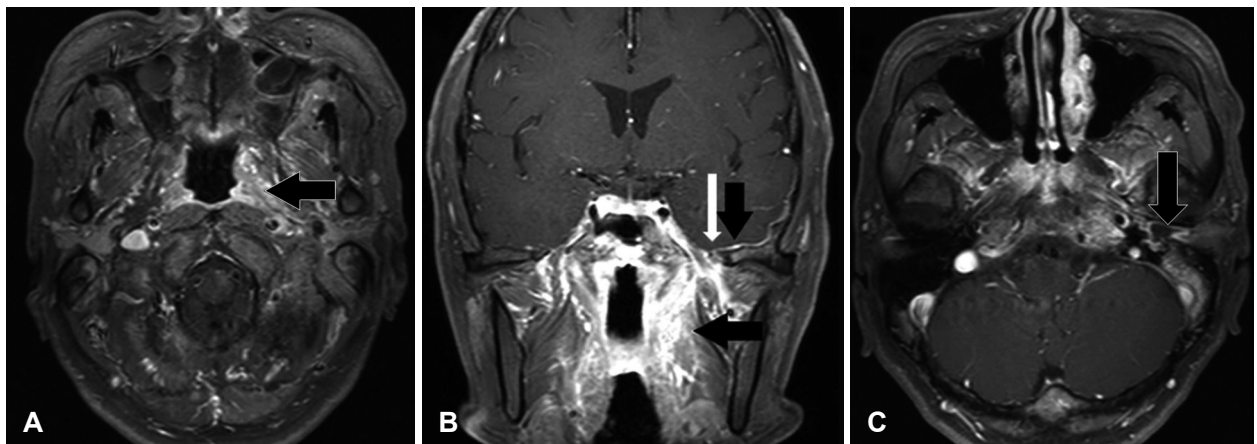
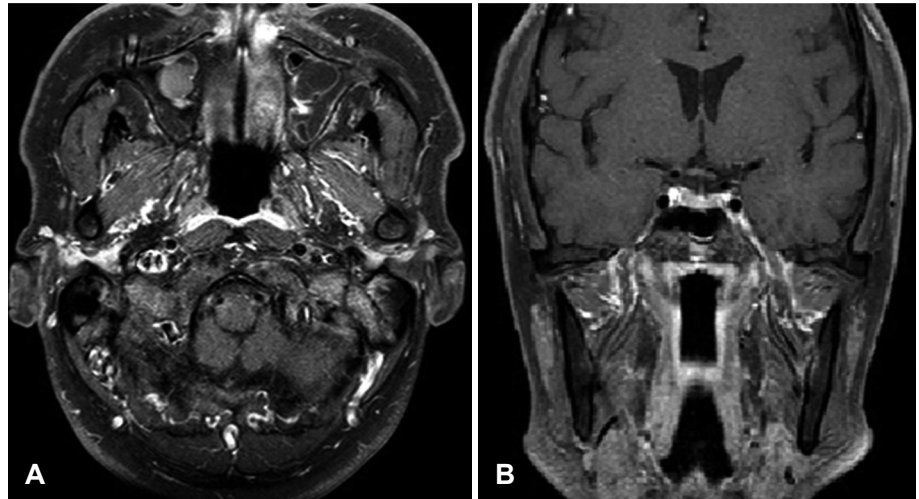


Fig. 2. Contrast enhanced T1 weighted magnetic resonance (MR) imaging suggesting inflammation of the skull base. MR image showing abnormal high signal of nasopharynx (black arrow)(A). Coronal MR image showing abnormal high signal of parapharyngeal space, dura mater (black arrows) and foramen ovale (white arrow)(B). MR image shows low signal density with peripheral enhancement suggesting abscess of external acoustic meatus (black arrow)(C).

Fig. 4. Follow up contrast enhanced T1 weighted magnetic resonance (MR) imaging (A: axial, B: coronal). Follow up MR imaging shows the significant improvement of inflammation in skull base as compared to previous MR imaging.



이 소실되었으나 감염내과의 의견에 따라 추가 2주 정도 항생제를 정맥주사로 유지하였고, 이후 경구 항생제(Levofloxacin)로 변경 후 환자는 퇴원하였다.

퇴원 1주 뒤 환자는 임상증상이 완전히 소실된 상태로 내원하여 경구 항생제는 중단하였고 시행한 MRI(Fig. 4)와 CT에서도 미세한 병변 이외에 이상 소견이 관찰되지 않았다. 퇴원한 달 뒤 안면신경마비는 House-Brackmann grade II로 호전된 양상을 보였다. 퇴원 3달 뒤 환자는 별다른 임상소견 없이 안면신경마비는 완전히 호전되었다.

고 찰

임상적으로 두개저 골수염이 의심되는 환자들은 조절되지 않는 이통, 두통, 이루를 주소로 내원하고, 대부분 고령에 당뇨를 기저질환으로 가지고 있으며 심한 경우 개구장애로 인하여 경구 섭취장애를 호소하는 경우도 있다. 두개저 골수염은 주로 임상적인 증상과 소견으로 진단하며 신체검사상에서 외이도의 충창을 보이고 화농성 이루를 동반하며 외이도 내부의 육아조직 또는 외이도 바닥의 골-연골 접합부 골 노출이 관찰된다. 또한 두개저의 뇌신경에 영향을 미쳐 안면신경마비 및 복시, 삼킴장애, 애성 등을 동반할 수 있고, 염증이 S상정맥동 또는 내경정맥으로 파급될 경우 해면정맥동혈전증(cavernous sinus thrombosis)을 일으켜 치명적인 결과를 초래할 수 있기 때문에 빠른 진단 및 처치가 시급한 질환이다.^{2,3)}

이성두개저 골수염의 대부분은 외이도염이 환자측 요인에 의한 혈관변성이나 허혈 등에 감소된 면역반응에 인한 면역력저하로 산토리니절흔(fissures of Santorini)을 통하여 두개저로 확산된 후, 치밀골의 골원(Haversian system)을 통과하여 두개저로 들어가 골수염을 유발하는 것으로 알려져 있다.⁴⁾ 특히, 당뇨가 있는 환자에서는 혈관변성이 중성구와 단핵구, 대식세포의 화학주성(chemotaxis) 및 포식작용(phagocytosis)에 영향을 미쳐 녹농균 감염에 대한 감수성을 증가시켜 병이 발생하는 것으로 알려져 있기 때문에^{5,6)} 정상 성인에서는 이성두개저 골수염이 발병할 가능성은 매우 낮다. 그러나 어떤 원인이던지 외이도의 상피세포를 침입할 만한 감염원이 존재한다면 이는 주변 연부조직으로의 염증 확산을 유발하여 악성외이도염이 발생할 가능성이 있으며 이로 인한 이성두개저 골수염의 발병 가능성이 있을 것으로 생각된다.⁷⁾ 이전 보고에서 외이도의 외상이나 자상에 의해 악성외이도염이 병발한 증례나⁸⁾ 외이도에 알카라인 건전지가 들어간 후 배출된 강염기성의 액체로 인해 외이도 조직괴사가 유발된 악성외이도염 유사 증례⁹⁾의 보고는 이러한 가설을 뒷받침하는 중요한 임상적 증거라 하겠다.

본 증례의 주목할 만한 특징 중 한 가지는 환자가 면역저하를 초래할 만한 병력이 없었으나 임상적으로 악성외이도염에 의한 두개저 골수염으로 진단되었고 외이도의 골-연골부 주위에서 주변조직과 심하게 유착된 면봉솜이 발견되었다는 것이다. 또한 이것을 제거한 후 안면신경마비를 제외한 환자의 증상이 바로 호전된 점과, 보통 특발성의 이성두개저 골수염의 경우 75일간의 정주 항생제를 포함하여 총 치료기간이 평균적으로 130일 정도 필요하고 재발이 잘되는 것을 고려하면,¹⁾ 12일만에 외이도의 염증소견이 사라지고 자기공명영상에서 두개저의 염증소견이 확연히 감소되었으며 이후 외래 관찰에서도 전혀 재발의 증거가 없었던 것을 고려하면 외이도 이물이 이성두개저 골수염을 일으킨 임상적 증거라고 생각된다.

두개저 골수염의 치료로 과거에는 수술적 광범위절제술이 이용되었으나, 현재는 원인 균주에 맞는 적절한 항생제의 장기간 투여와 외이도 염증성 육아조직의 제거가 주된 근간이 되고 있다. 이전에는 Quinolone 계열인 경구 Ciprofloxacin의 투여가 최소 6~8주가량 추천되었으나¹⁰⁾ 최근 높은 약물 내성으로 인해 본 증례에서는 3세대 세팔로스포린인 Ceftazidime^{3,11)}을

처음 경험적 항생제로 사용하였다. 이후 3세대 세팔로스포린 보다 더 그람 음성균에 선택적인 4세대 세팔로스포린을 20일간 사용하였다. 보통은 임상적 증상이 호전되더라도 6주에서 8주 가량 정주 항생제를 사용하는 것을 권고하고 있으나¹²⁾ 당뇨가 없는 환자에서는 국소 괴사조직 제거술 및 2~4주간의 경구 항생제로도 빠르게 회복된다는 보고가 있다.¹³⁾ 본 증례에서도 이물 제거와 적절한 항생제 사용으로 4일만에 통증이 호전되고 4주만에 자기공명영상에서 병변이 유의하게 호전되었다.

치료 효과 판단을 위해 여러 영상기법들이 소개되고 있는데, Gallium-67 scan은 두개저 감염이 호전되면 조직내의 Gallium 흡수율이 정상으로 돌아오기 때문에 치료효과를 판정하는 데 유용한 것으로 알려져 있다.¹⁴⁾ 하지만 본원 사정상 치료효과는 자기공명영상을 이용하여 판정하였다. 사실 자기공명영상은 전산화단층촬영에 비하여 경막의 조영증강이나 골수의 연관 정도와 같은 연조직의 변화를 관찰하는 데 더 유용하나, 질병의 관해에도 불구하고 영상학적 이상소견이 남아있는 경우가 많아 치료효과를 판정하기에는 적합하지 않다.¹⁵⁾ 본 증례에서는 임상증상이 호전되고, 자기공명영상에서도 질병의 관해가 확인되어 치료 종료시점을 결정하는 데 도움이 되었지만 이물 제거 후 환자의 혈액학적 소견과 임상적 소견이 호전되었음에도 불구하고 자기공명영상검사의 이런 문제로 인하여 두개저 골수염의 호전 정도를 적절히 확인하지 못하여 오히려 불필요한 치료를 지속하였을 가능성도 있다.

본 증례에서의 임상경과를 종합하여 볼 때 환자가 면역억제 상태나 당뇨가 없었음에도 이성두개저 골수염으로 진단되었다는 것과, 1년 전 면봉이 귀에 들어간 이후 별다른 처치를 하지 않은 상태에서 반복적인 이통과 이루가 있었던 점, 입원치료 중에 골-연골 접합부에서 주변조직과 심하게 유착되어 있던 면봉이 발견되었다는 점, 그리고 이물 제거 후 환자의 임상적 소견이 보통의 이성두개저 골수염 환자들과 달리 빠른 시간 안에 현저히 호전된 사실은 면봉에 의한 만성적인 외이도 폐쇄와 염증이 이성두개저 골수염의 중요한 원인인자임을 시사하는 소견이라 생각된다. 물론 정상 성인이나 소아에서 외상이나 자상에 의해 발생한 두개저 골수염에 대한 증례보고가 있고 알카라인 같은 화학적 성분에 의해 조직괴사에 의한 악성 외이도염의 증례 보고가 있지만 이 증례의 특징은 면봉솜 같은 단순한 외이도 이물에 의해서도 이성두개저 골수염이 일어날 가능성을 실제

로 보고한 첫 번째 증례라는 점이다. 따라서 특별한 면역학적 문제가 없이 발생하는 이성두개저 골수염 환자에서는 알려지지 않은 동반된 다른 질환에 대한 가능성 외에 외이도 이물에 대한 가능성을 또한 염두하여 상세한 신체검사와 병력청취가 필요할 것으로 생각된다.

REFERENCES

- 1) Lee S, Hooper R, Fuller A, Turlakow A, Cousins V, Nouraei R. Otogenic cranial base osteomyelitis: a proposed prognosis-based system for disease classification. *Otol Neurotol* 2008;29(5):666-72.
- 2) Franco-Vidal V, Blanchet H, Bebear C, Dutronc H, Darrouzet V. Necrotizing external otitis: a report of 46 cases. *Otol Neurotol* 2007; 28(6):771-3.
- 3) Berenholz L, Katzenell U, Harell M. Evolving resistant pseudomonas to ciprofloxacin in malignant otitis externa. *Laryngoscope* 2002;112 (9):1619-22.
- 4) Sreepada GS, Kwartler JA. Skull base osteomyelitis secondary to malignant otitis externa. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2003; 11(5):316-23.
- 5) 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(1):27-35.
- 6) Geerlings SE, Hoepelman AI. Immune dysfunction in patients with diabetes mellitus (DM). *FEMS Immunol Med Microbiol* 1999;26(3-4):259-65.
- 7) Chandler JR. Malignant external otitis and osteomyelitis of the base of the skull. *Am J Otol* 1989;10(2):108-10.
- 8) Hariga I, Mardassi A, Belhaj Younes F, Ben Amor M, Zribi S, Ben Gamra O, et al. Necrotizing otitis externa: 19 cases' report. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2010;267(8):1193-8.
- 9) Bhisitkul DM, Dunham M. An unsuspected alkaline battery foreign body presenting as malignant otitis externa. *Pediatr Emerg Care* 1992; 8(3):141-2.
- 10) Levenson MJ, Parisier SC, Dolitsky J, Bindra G. Ciprofloxacin: drug of choice in the treatment of malignant external otitis (MEO). *Laryngoscope* 1991;101(8):821-4.
- 11) Kimmelman CP, Lucente FE. Use of ceftazidime for malignant external otitis. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1989;98(9):721-5.
- 12) Carfrae MJ, Kesser BW. Malignant otitis externa. *Otolaryngol Clin North Am* 2008;41(3):537-49, viii-ix.
- 13) Shpitzer T, Stern Y, Cohen O, Levy R, Segal K, Feinmesser R. Malignant external otitis in nondiabetic patients. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1993;102(11):870-2.
- 14) Okpala NC, Siraj QH, Nilssen E, Pringle M. Radiological and radionuclide investigation of malignant otitis externa. *J Laryngol Otol* 2005;119(1):71-5.
- 15) Grandis JR, Curtin HD, Yu VL. Necrotizing (malignant) external otitis: prospective comparison of CT and MR imaging in diagnosis and follow-up. *Radiology* 1995;196(2):499-504.