

2

악성 외이도염과 두개저 골수염에서 파생된 측두하악관절의 이차성 급성농양 환자에서 관절강 세척술을 통한 치험례: 증례보고

신은섭, 곽현진, 김소현, 최유성, 김복주, 김철훈, 김정환*

동아대학교 의과대학 구강악안면외과학교실

ORCID ID

Eun-Sup Shin,  <https://orcid.org/0000-0002-7654-2418>

Hyun-Jin Kwak,  <https://orcid.org/0000-0002-0110-0826>

So-Hyun Kim,  <https://orcid.org/0000-0002-4953-9627>

Yu-Sung Choi,  <https://orcid.org/0000-0002-5022-8340>

Bok-Joo Kim,  <https://orcid.org/0000-0002-7482-8738>

Chul-Hoon Kim,  <https://orcid.org/0000-0002-2719-1922>

Jung-Han Kim,  <https://orcid.org/0000-0002-3469-6136>

ABSTRACT

Arthrocentesis and lavage in a patient with acute abscess of the temporomandibular joint from malignant external otitis and skull-base osteomyelitis: A Case Report

Eun-Sup Shin, Hyun-Jin Kwak, So-Hyun Kim, Yu-Sung Choi, Bok-Joo Kim, Chul-Hoon Kim, Jung-Han Kim*

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Medicine, Dong-A University

Arthrocentesis and lavage is a conservative method to treat temporomandibular joint disorders by discharging substances that cause inflammation and pain in the temporomandibular joint and resolving temporomandibular joint adhesions. The temporomandibular joint is susceptible to malignant external otitis and skull-base osteomyelitis due to its anatomical proximity. This case is a treatment of performing arthrocentesis and lavage in a patient with secondary acute abscess formation in the temporomandibular joint derived from primary skull-base osteomyelitis caused by malignant external otitis.

Key words : Arthrocentesis and lavage, Temporomandibular joint disorder, Malignant external otitis, Skull-base osteomyelitis

Corresponding Author

Jung-Han Kim, DDS, PhD, Assistant Professor
Department of Oral and Maxillofacial Surgery, College of Medicine, Dong-A University,
26, Daesingongwon-ro, Seo-gu, Busan, 49201, Republic of Korea.
Tel : +82-51-240-5470 / fax : +82-51-241-5475 / Email : omfsjhkim@dau.ac.kr

I. 서론

악성 외이도염은 외이도의 광범위한 감염으로 항생제 치료에 잘 반응하지 않으며 감염이 연조직에 국한되는 경우를 말한다¹⁾. 악성 외이도염은 악성종양은 아니지만 임상적으로 매우 침습적인 양상을 나타내며 항생제가 도입되기 이전의 사망률은 50% 정도에 이르렀을 정도로 치료가 어려운 질병이었다^{2,3)}.

이러한 악성 외이도염은 감염이 진행되면 해부학적 위치와 근접한 측두골 또는 두개 기저골로 진행되기도 하며 전하방으로는 측두하악관절로 감염이 파급되어 측두하악관절 장애를 유발하기도 한다⁴⁾.

감염이 두개 기저골로 진행된 경우 두개저 골수염이라 하며 드물게 나타나지만 치명적인 감염성 질환으로 주로 고령의 당뇨병 환자 또는 면역이 저하된 환자에서 외이도염의 합병증으로 발생한다⁵⁾. 두개저 골수염은 초기에 두통 등을 호소하며 증상이 측두하악관절 장애와 유사한 경우가 많아 임상적인 감별 진단이 쉽지 않으며, 조기 진단하지 못해 치료 시기를 놓치게 되면 다발성 뇌 신경 마비와 함께 사망률이 28~60%까지 이르는 치명적인 질환이다⁶⁾.

측두하악관절은 해부학적으로 외이도와 중이의 전하방에 위치하며 얇은 골벽으로 나뉘어져 있어 중이나 외이도 심부에 감염이 존재하면 측두하악관절에도 영향을 주게 된다. 이러한 측두하악관절과의 해부학적 근접성으로 인해 악성 외이도염은 측두하악관절강에 이차적 감염을 발생시킬 수 있으며 이로 인해 측두하악관절 장애를 유발하게 된다^{4,7)}.

본 증례는 악성 외이도염으로 인해 좌측 두개저 골수염으로 진단된 환자에서 발생한 측두하악관절의 이차성 급성 농양을 관절강세척술을 시행하여 치료한 증례로 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

II. 증례 보고

기저질환으로 당뇨, 고혈압, 폐색전증, 심부정맥혈전증, 전립선비대증, 만성신질환을 앓고 있는 69세 남성 환자가 2개월 전 발생한 좌측 이루(otorrhea)와 외이도염으로 이비인후과 의원에서 치료를 받다가 두통이 심해져 2019년 12월 11일 동아대학교병원 이비인후과에 입원하였다. 입원 시 시행한 혈액검사 결과 염증지수인 C-reactive protein(CRP) 6.02 mg/dL, erythrocyte sedimentation rate(ESR) 66 mm/hr으로 나타났으며, 임상적으로는 좌측 고막에서 작은 천공(perforation) 및 용종(inferior polyp), 고름이 관찰되었다.

입원하여 temporal bone computerized tomography(TBCT), magnetic resonance imaging(MRI)를 촬영하였고, 그 결과 TBCT에서 좌측 두개저에서 골 침식 및 유돌벌집(mastoid air cell)에서 삼출 소견이 관찰되었고(Fig. 1) 두개저 골수염 진단하에 세파계열 3세대 항생제인 Ceftriaxone을 처방받았다. MRI 촬영 결과 좌측 측두하악관절 내 농양 소견 및 주변 연조직 비후 소견이 관찰되었다(Fig. 2,3). 환자는 측두하악관절 부위의 통증 및 개구장애를 호소하였는데 이에 측두하악관절 장애, 농양의 평가 및 처치를 위해 구강악안면외과로 의뢰되었다. 본과에서 촬영한 파노라마 방사선 사진 상 좌측 과두의 뚜렷한 골 흡수 소견은 관찰되지 않았으나(Fig. 4), 임상적으로는 개구 제한이 관찰되었으며 능동적 개구량(MCO, maximum comfortable opening)은 24 mm, 그리고 좌측 측두하악관절 촉진 시 심한 통증을 보였다. 이에 본과적으로 좌측 측두하악관절 내 농양의 배출 및 임상 증상의 호전을 위해 관절강세척술을 계획하였다. 입원 후 6일째(2019.12.17.), 13일째(2019.12.24.) 좌측 측두하악관절에 관절강세척술을 시행하였다. 턱관절 외측 피부 및 턱관절강 낭까지 국소마취 시행 후 이주-외안각선(tragus-outer canthus line)상에서 이주로부터 전방 10mm, 하

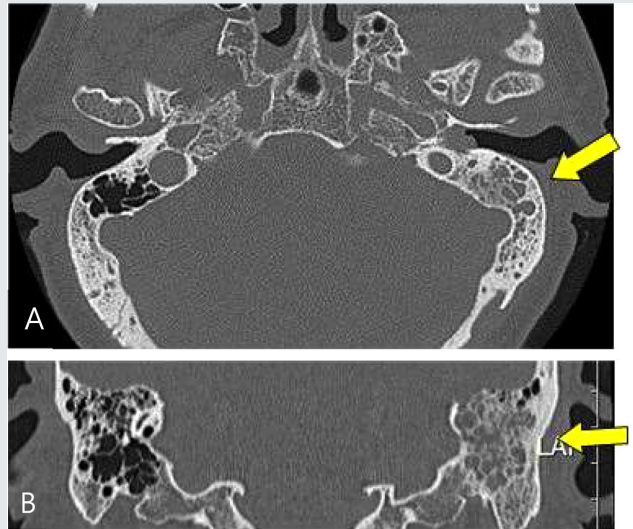


Fig. 1. Temporal bone CT image. (A) Axial view of TBCT. (B) Coronal view of TBCT. TBCT image shows effusion in the left mastoid air cell (A,B yellow arrow).

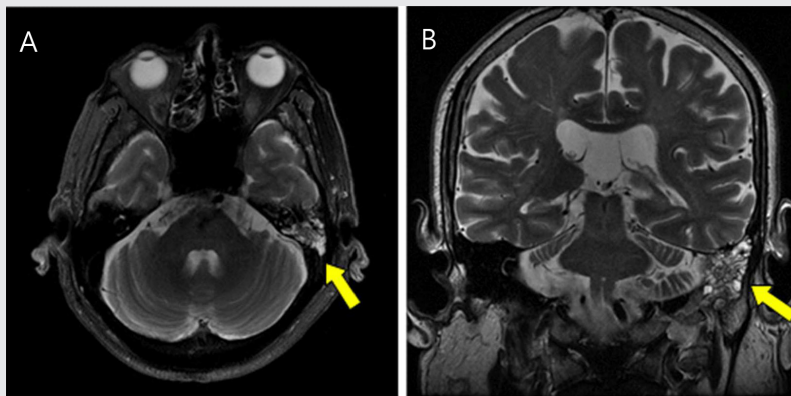


Fig. 2. Initial MRI image. (A) Axial view of T2-weighted image. (B) Coronal view of T2-weighted image. MRI image shows effusion in the left mastoid air cell (A,B yellow arrow).

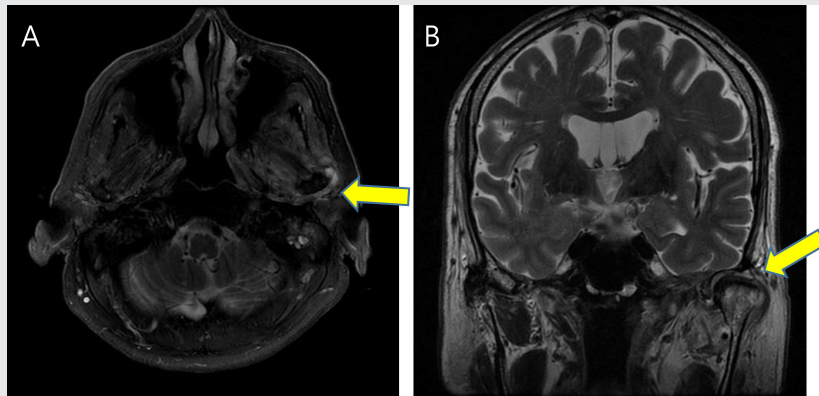


Fig. 3. Initial MRI image. (A) Axial view of T2-weighted image. (B) Coronal view of T2-weighted image. MRI image shows abscess formation of the left temporomandibular joint (A,B yellow arrow).



Fig. 4. The panoramic radiograph doesn't show obvious left condylar resorption.

방 2mm 지점의 제1천자 부위를 needle을 이용하여 생리식염수로 세척하였다. 그 후 선을 따라 전방 20mm, 하방 10mm 지점의 제2천자 부위에 needle을 삽입하여 수액을 제1천자 부위에 연결하고 15~20분 간 세정하였으며⁸⁾, 관절강세척술 시 염증성 물질의 배출이 확인되었다. 입원 당시 좌측 귀에서 관찰된 농으로 시행한 균 배양(culture) 결과를 확인하였다. 그 결과 *Pseudomonas aeruginosa*가 검출되었고 입원 후 4일째부터는 minimum inhibitory concentration(MIC)를 토대로 해당

균에 효과가 있다고 알려진 퀴놀론계열 항생제 Ciprofloxacin 400mg/200ml/bag으로 변경하여 처방하였다(Table 1)⁹⁾. 입원 후 7일째 시행한 조직검사 결과에서는 급성화농성염증(acute suppurative inflammation)으로 확인되었고 관절강 세척술 후 지속적으로 시행한 혈액검사 소견상 CRP 및 ESR이 호전되는 양상을 관찰할 수 있었다(Table 2).

입원 후 20일 째는 경과관찰 위해 MRI를 촬영하였고 이전 촬영 결과와 비교하여 병소가 호전된 양상을 관찰할

Table 1. Antibiotic sensitivity results of the culture from pus on the left ear

항생제코드	항생제명	세균명/판정	결과(MIC)
<i>Pseudomonas aeruginosa</i>			
TZP	Piperacillin/Tazobactam	S	≤4.0
TAZ	Ceftazidime	S	≤1.0
FEP	Cefepime	S	≤1.0
AZM	Aztreonam	S	4.0
IMI	Imipenem	S	1.0
MEM	Meropenem	S	≤0.25
AN	Amikacin	S	≤2.0
GM	Gentamicin	S	≤1.0
CIP	Ciprofloxacin	S	≤0.25
CS	Colistin	S	≤0.5

*MIC(minimum inhibitory concentration, µg/ml)

Table 2. Changes in inflammatory marker of blood test

	CRP (mg/dL)	ESR (mm/hr)
2019.12.11	6.02	66
2019.12.21	2.93	61
2019.12.28	1.37	60
2020.01.03	0.64	44
2020.01.31	0.28	28

*CRP(C-reactive protein), ESR(erythrocyte sedimentation rate)

수 있었다(Fig. 5,6). 또한 임상양상 호전, 능동적 개구량(MCO) 44 mm로 증가 및 측두하악관절에 대해서도 증상이 완화되어 퇴원하였다.

이후 외래 내원 시 특별한 임상적 소견이 관찰되지 않았으며 혈액검사 결과상 CRP 및 ESR은 정상 범위로 유지되는 것을 관찰할 수 있었고 지속적인 경과관찰에서도 다른 특이 소견이 관찰되지 않았다.

III. 고찰

관절강세척술(arthrocentesis and lavage)은 관절강 내 세척과 유착의 해소에 주된 목적을 둔 치료 방법으로 상관절강에 2개의 주사침을 삽입하여 생리식염수로 관절강 내를 세척하며 관절강 내 유착조직을 수압으로 박리시키고 관절액 중 동통 유발 물질 및 감염을 세척하며 관절

강 내 음압을 해소함으로써 개구운동 증가 및 관절의 동통을 감소시키는 효과를 나타낸다. 또한 관절강세척술은 외과적 수술에 비해 침습도가 적고 손 쉽게 시행할 수 있으며 합병증이 적다는 장점이 있다¹⁰⁾.

악성 외이도염은 우선적으로 당뇨 또는 합병증 등 전신적인 질환의 조절이 선행되어야 하며 세파계열 항생제 요법으로 치료를 진행하는 것이 일반적이다^{11,12)}. 문헌에 따르면 외과적인 개입 없이 항생제만 사용하여 치료된 증례가 보고되고 있으며 최소 6주 이상의 장기간 항생제 사용을 필요로 하게 된다¹³⁾.

감염이 파급되어 두개저 골수염으로 진단 된 경우에도 적절한 항생제의 장기간 사용이 보편적인 치료 방법으로 선택되며 Ciprofloxacin을 사용하여 두개저 골수염의 합병증이 있는 악성 외이도염 환자를 치료한 사례도 보고되고 있다¹³⁾.

관절외와 과두에 광범위한 골파괴가 관찰되는 경우에

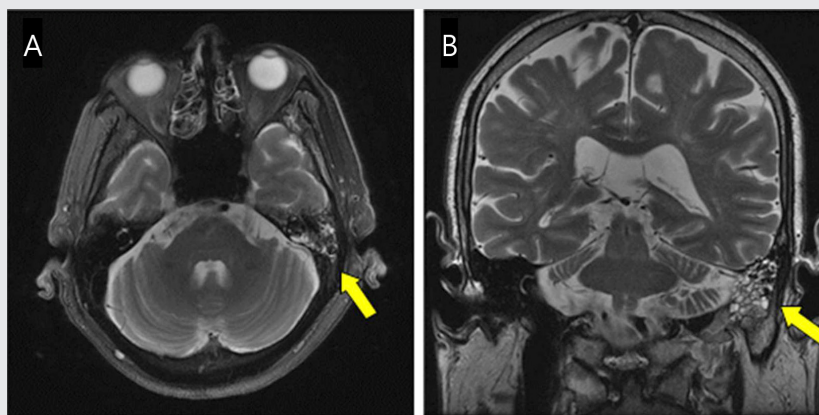


Fig. 5. Follow-up MRI image. (A) Axial view of T2-weighted image. (B) Coronal view of T2-weighted image. MRI image shows reduction of the effusion after arthrocentesis and lavage (A,B yellow arrow).

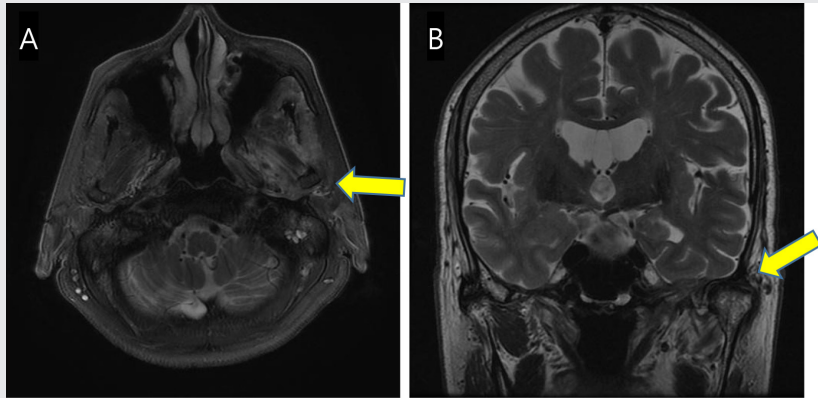


Fig. 6. Follow-up MRI image. (A) Axial view of T2-weighted image. (B) Coronal view of T2-weighted image. MRI image shows reduction of the abscess formation after arthrocentesis and lavage (A,B yellow arrow).

는 수술적 치료가 권장되기도 하며 수술적 요법으로는 염증 제거 및 억제제를 위해 유양돌기 절제술 및 두개저 침범 골의 제거 등 광범위한 절제술이 시행되나 이는 또한 감염이 퍼질 새로운 공간의 형성 및 다른 병에 이환될 가능성을 높여줄 수 있다는 위험성이 있다¹⁴⁾. 따라서 치료 방법을 결정하는 데 있어 충분한 평가와 진단이 선행되어야 하며 초기 검사에서 감염 파급의 범위를 정확히 밝혀 수술적 요법의 결정에 신중을 기해야 한다¹⁵⁾.

두개저 골수염의 진단을 위해서는 CT 및 MRI 영상 등이 유용하게 쓰인다¹⁶⁾. CT는 골 침식 정도, 두개저의 골염 및 골 파괴 정도를 구분하는데 이용된다. MRI는 연조직의 변화를 나타내 병변 범위를 확인하는 데 도움이 된다. 또한 T2 강조영상을 통해 감염으로 인한 체액성 내용물을 볼 수 있으며 신호 강도와 조영 강도의 변화를 이용하여 두개저부 골의 병적 변화를 알 수 있다^{6,17)}.

본 증례에서는 파노라마, TBCT 및 MRI 영상을 통해

좌측 유돌별집에서의 삼출, 관절강 내의 농양이 관찰되었으며 좌측 측두하악관절의 개구 장애 및 통증이 임상적으로 확인되었다.

일반적으로 치성감염으로 인해 농양이 생긴 경우 치료의 원칙은 외과적 시술을 통해 배농을 시행하고 감염의 원인을 제거하는 것이다¹⁸⁾. 본원 이비인후과에서는 입원하여 항생제 치료를 시행하고 있었고 환자의 임상 증상 및 혈액검사를 주기적으로 체크하며 방사선학적으로는 TBCT, MRI 등을 촬영하여 호전 양상 등을 확인하고 있었다. 입원 중 개구 장애, 측두하악관절 통증 및 농양을 주소로 본과로 의뢰되었다.

이에 본과적으로는 환자가 앓고 있는 기저질환이 많고 기저골 파괴 양상이 심하지 않다는 판단하에 보존적인 처치를 우선적으로 계획하였다. 또한 측두하악관절 장애로 인해 음식 섭취가 어려워 전신적인 컨디션 회복이 힘들었기에 관절강 내의 농양의 배출 및 측두하악관절 장애를 해

소시킴을 위해 비침습적이며 빠르게 치료할 수 있는 관절강 세척술을 시행했고 이를 통해 임상적으로 측두하악관절의 통증 해소, 개구량 증가 및 혈액검사 소견에서도 호전된 결과를 확인할 수 있었다.

IV. 결론

이 증례는 당뇨를 포함하여 여러 질환을 가지고 있는 환자의 좌측 외이도염에서 시작된 원발성 두개저 골수염으로부터 파생된 이차성 급성 농양이 발생한 예로 좌측 턱관절의 통증, 개구장애 및 감염 등을 지속적인 항생제 치료와 관절강 세척술을 통해 해소시킬 수 있었다. 향후 연구에서는 두개저 골수염 환자의 관절강 세척술 및 기타 치료 방법의 장단점에 대한 지속적인 논의가 필요할 것이다.

참 고 문 헌

1. Benecke JE Jr. Management of osteomyelitis of the skull base. *Laryngoscope*. 1989;99(12):1220-1223.
2. Chandler JR. Malignant external otitis. *Laryngoscope*. 1968;78(8):1257-1294.
3. Nadol JB Jr. Histopathology of *Pseudomonas* osteomyelitis of the temporal bone starting as malignant external otitis. *Am J Otolaryngol*. 1980;1(5):359-371.
4. Yeheskel E, Eta RA, Gavriel H, Kleid S, Eviatar E. Temporomandibular joint involvement as a positive clinical prognostic factor in necrotising external otitis. *J Laryngol Otol*. 2016 May;130(5):435-9.
5. Bruschini L, Berrettini S, Christina C, Ferranti S, Fabiani S, Cavezza M, Forli F, Santoro A, Tagliaferri E. Extensive Skull Base Osteomyelitis Secondary to Malignant Otitis Externa. *J Int Adv Otol*. 2019 Dec;15(3):463-465.
6. Kountakis SE, Kemper JV Jr, Chang CY, DiMaio DJ, Stiernberg CM. Osteomyelitis of the base of the skull secondary to *Aspergillus*. *Am J Otolaryngol*. 1997;18(1):19-22.
7. Midwinter KI, Gill KS, Spencer JA, Fraser ID. Osteomyelitis of the temporomandibular joint in patients with malignant otitis externa. *J Laryngol Otol*. 1999;113(5):451-453.
8. Tvrdy P, Heinz P, Pink R. Arthrocentesis of the temporomandibular joint: a review. *Biomed Pap Med Fac Univ Palacky Olomouc Czech Repub*. 2015 Mar;159(1):31-4.
9. Laghmouche N, Compain F, Jannot AS, Guigui P, Mainardi JL, Lonjon G, Bouyer B, Fernandez-Gerlinger MP. Successful treatment of *Pseudomonas aeruginosa* osteomyelitis with antibiotic monotherapy of limited duration. *J Infect*. 2017 Sep;75(3):198-206.
10. Nitzan DW, Dolwick MF, Martinez GA. Temporomandibular joint arthrocentesis: a simplified treatment for severe, limited mouth opening. *J Oral Maxillofac Surg*. 1991;49(11):1163-1167.
11. Vernham, G.A., Robinson, D., Resouly, A. and Shaw, K.M. Malignant otitis externa — a serious complication of diabetes mellitus. *Pract Diab Int*. 1988;5:177-179.
12. Karaman E, Yilmaz M, Ibrahimov M, Hacıyev Y, Enver O. Malignant otitis externa. *J Craniofac Surg*. 2012 Nov;23(6):1748-51.
13. 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.
14. 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(4):398-403.
15. Soudry E, Hamzany Y, Preis M, Joshua B, Hadar T, Nageris BI. Malignant external otitis: analysis of severe cases. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2011 May;144(5):758-62.
16. Chapman PR, Choudhary G, Singhal A. Skull Base Osteomyelitis: A Comprehensive Imaging Review. *AJNR Am J Neuroradiol*. 2021 Mar;42(3):404-413.
17. Mejzlik J, Cerny M, Zeinerova L, Dedkova J, Kopriva J, Zadrobilek K, Adamkov J, Chrobok V, Pellantova V. The routes of infection spread in central skull-base osteomyelitis and the diagnostic role of CT and MRI scans. *BMC Med Imaging*. 2019 Aug 1;19(1):60.
18. Krishnan V, Johnson JV, Helfrick JF. Management of maxillofacial infections: a review of 50 cases. *J Oral Maxillofac Surg*. 1993;51(8):868-73.