CASE REPORT

pISSN 1229-1498 / eISSN 2384-4361

J Rhinol 2018;25(2):108-113 https://doi.org/10.18787/jr.2018.25.2.108

www.ksrhino.or.kr

치성낭종으로 오인된 상악동 콜레스테롤 육아종의 1례

인제대학교 의과대학 일산백병원 이비인후과학교실

한 병 현 · 최 익 수

A Case of Cholesterol Granuloma of Maxillary Sinus Misdiagnosed as Odontogenic Cyst

Byung Hyun Han, MD and Ick Soo Choi, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Inje University of College of Medicine, Ilsan Paik Hospital, Ilsan, Korea

Cholesterol granuloma is a disease in which cholesterol crystals act as a foreign substance in the surrounding tissues and cause granulomatous reaction and fibrosis within the chamber. It is found in various locations of the body, but the most common location is the temporal bone associated with middle ear disease. Because the disease is associated with breathing disturbance, it may also occur in the paranasal sinus. However, it has been rarely reported since its first report by Graham and Michaels in 1978. Recently, we experienced a case of cholesterol granuloma of the right maxillary sinus of a 63-year-old female patient without any nasal symptoms. We successfully managed this case with Caldwell-Luc operation. Also, we summarized the cases of cholesterol granuloma of the sinonasal region reported in Korea.

KEY WORDS: Cholesterol granuloma · Maxillary sinus.

서 론

콜레스테롤 육아종은 조직학적으로 결체조직 내 거대세포와 콜레스테롤 결정으로 이루어져 있는 것이 특징이며[1)2)] 생성 기전으로는 배액의 지연, 출혈 그리고 부적절한 환기 등에 의한 것으로 알려져 있다.[3)]

Manasse[4)]가 중이 내 콜레스테롤 육아종 발생을 처음으로 기술한 이후 중이, 유양동, 추체첨 등에서 만성 염증과 관련되어 주로 발생하는 것으로 알려져 왔으며, 전두골, 협골, 부비동, 유선, 복막, 폐 등에서 발생하는 경우도 매우 드물게 보고되고 있다.[5-7)] 이 중 부비동에서의 발생은 1978년 Grapham 등[8)]이 상악동 내 발생한 콜레스테롤 육아종을 처음 보고하였으며 국내에서도 비부비동 영역에 발생한 경우들이 종종 보고되고 있다. 현재까지 보고된 6례의 상악동에 발생한 콜레스테롤 육아종의 경우 모두 농성 비루, 비폴립 등의 비증상 징후를 동반하고 있는 것으로 보고되었다.

최근 저자들은 다른 증상 없이 우측 뺨의 부종 만을 주소로 내원하여 치성낭종이 의심되었던 환자에서 수술 후 조직학적으로 콜레스테롤 육아종을 진단하여 문헌 고찰과 함께 보고하며, 또한 국내에서 보고된 비강 및 부비동 내 콜레스테롤 육아종에 대한 보고를 정리하여 함께 보고하는 바이다.

증 례

63세 여자가 6개월 전부터 발생한 우측 뺨의 부종을 주소로 치과 치료를 받던 중 발견된 우측 상악동 낭종으로 의뢰

논문접수일: 2017년 10월 24일 / **수정완료일**: 2018년 1월 23일 / **심사완료일**: 2018년 5월 23일

교신저자: 최익수, 10380 경기 고양시 일산서구 주화로 170 인제대학교 의과대학 일산백병원 이비인후과학교실

Tel: +82-31-910-7250, **Fax**: +82-31-910-7518, **E-mail**: leochoics@gmail.com

Copyright © 2018 Journal of Rhinology

되었다. 환자는 당뇨 외 특이 병력이 없었으며, 과거 병력상 두경부의 외상이나 코 질환의 병력, 수술을 받은 병력은 없었고 현병력상 비출혈, 비폐색, 비루, 후비루, 두통, 치통 등의 증상은 없었으며 비내시경 소견상 특이소견 관찰되지 않았다.

부비동 전산화단층촬영에서 우측 상악동의 하벽에 발치된 16, 17번 치아 위로 약 2 cm 가량의 비교적 균질성인 단방낭(Unilocular cyst)이 피질골을 경계로 형성되어 있었고 상악동이 팽창되어 외측벽이 밀려있는 소견과 함께 일부 골결손이 있었다(Fig. 1) 자기공명영상 T1 강조영상에서는 지방조직보다는 신호 강도가 떨어지나 연부조직보다는 신호 강도가 높고(Fig. 2A and B), T2 강조영상에서는 혼합된 신

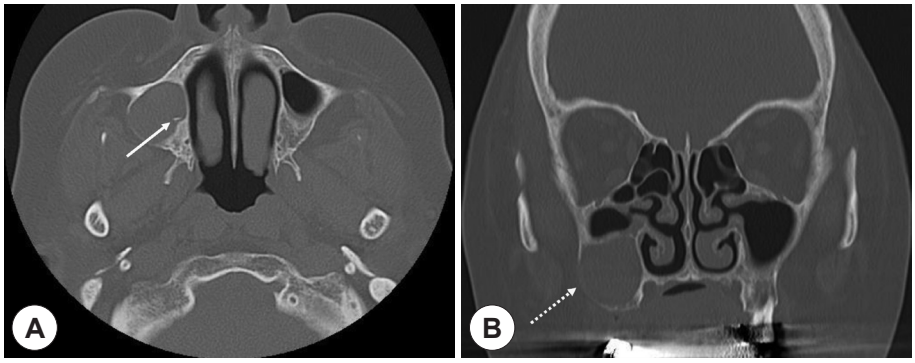

Fig. 1. Preoperative paranasal sinus CT scans. Axial (A) and coronal (B) view of paranasal sinus CT scan shows about 2 cm sized inflammatory cyst bordered by a thin rim of cortical bone (line arrow: bony septation, dot arrow: lateral wall thinning).

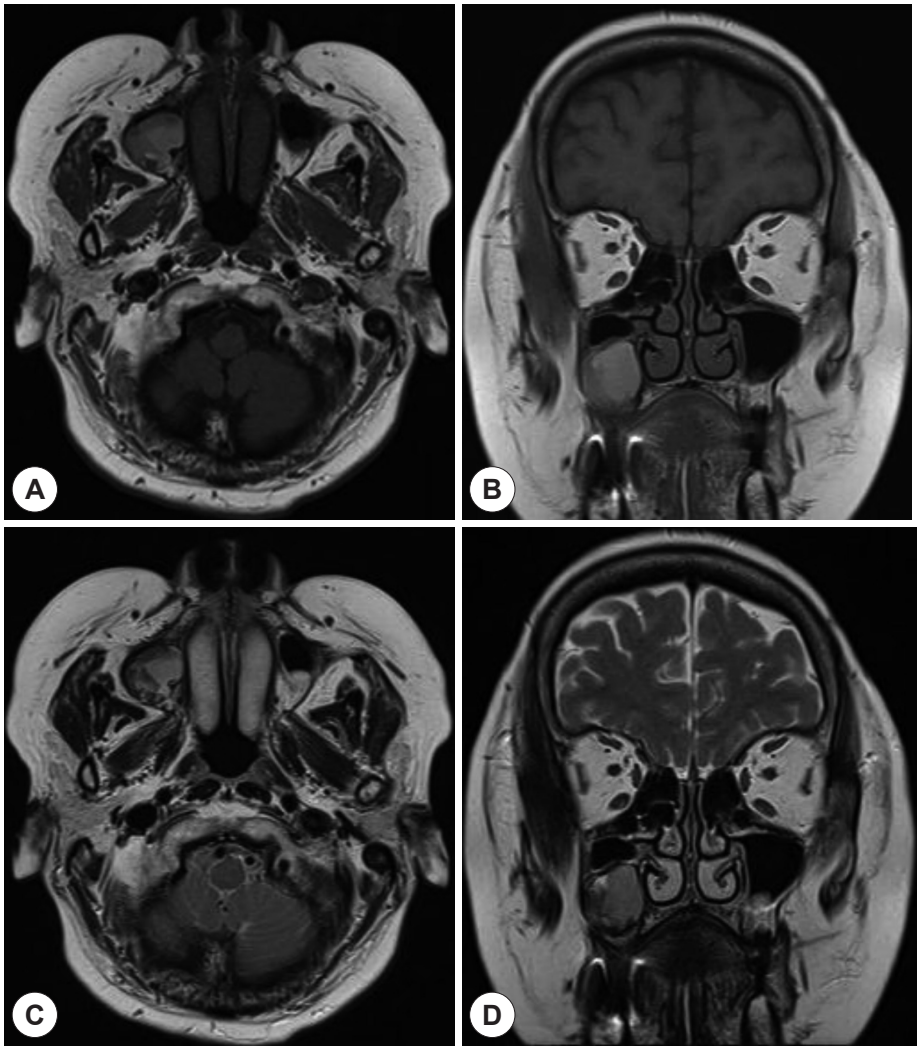

Fig. 2. Preoperative paranasal sinus MRI images. Axial (A) and coronal (B) T1-weighted MRI image shows a cystic mass in the maxillary sinus with iso to high or intermediate signal intensity. Axial (C) and coronal (D) T2-weighted MRI image shows a cystic mass in the maxillary sinus with heterogenous signal intensity.

호 강도를 보이는 비교적 경계가 명확한 종물이 우측 상악동을 채우고 있는 소견을 보였다(Fig. 2C and D).

종물제거술은 전신마취하에 Caldwell-Luc 접근법에 의한 상악동절개(antrostomy)를 시행하였으며, 종물을 완전히 제거한 후 종물 후방에 위치한 상악동 중격을 제거하고 술 후 배액과 수술 부위 확인을 목적으로 한 내시경적 중비도 개방술을 시행하였다.

수술 시 관찰된 상악동 내부의 종물은 주위와 경계가 명확한 얇은 막을 갖는 낭종 형상으로 내부에 황갈색 젤리 양상의 점액성 액체를 다량으로 함유하고 있었다. 조직검사 상 거대세포에 싸여있는 콜레스테롤 결정과 주변에 만성 염증세포의 침윤, 섬유화 등이 관찰되었고, 섬유성 기질 내에는 헤모시데린 침착물이 탐식된 조직세포들이 관찰되어 상악동에 발생한 콜레스테롤 육아종으로 최종 진단되었다(Fig. 3A and B).

술 후 경과는 양호하여 6일째 퇴원하였으며, 술 후 1년째 비내시경 검사상 우측 상악동의 환기는 잘 유지되었고 별다른 합병증 없이 추적 관찰중이다(Fig. 4A and B).

고 찰

일반적으로 콜레스테롤 육아종은 주로 중이 병변과 연관되어 나타난다. 비과 영역에서 매우 드물기는 하나 현재까지 국내에 19례가 보고되었으며, 그 중 상악동에서 6례가 발견되었다(Table 1). 부비동에서 발생한 콜레스테롤 육아종의 경우 매우 서서히 자라는 무통성 종괴로 위치에 따라서 증상이 다양하게 나타날 수 있으며 크기가 커지면서 안면통, 안구돌출, 복시, 비폐색 등이 나타날 수 있다.[10] 상악동에 발생한 경우에는 주로 동측의 비폐색이 주호소인 경우가 많았으나(Table 1) 본 증례에서는 비폐색은 없었지만 우측 뺨의 부종 만으로 치과 치료를 받던 중 촬영한 전산화단층촬영에서 우연히 발견된 우측 상악동 낭종으로 의뢰되었으며, 추가로 촬영한 자기공명영상촬영에서는 치성각화낭종이 의심되었다. 치성각화낭종은 1956년 처음 보고된 이후로 다른 치성낭종과는 다르게 재발율이 높고 침습적으로 진행하며 조직학적으로 특이 소견을 나타내어 많은 보고가 되어왔고, 일반적인 임상증상은 악골내의 다른 낭종과 마찬가지로 병소가 발생된 부위의 국소적 종창, 낭종액의 자발적 배농 및 동통이며, 특이 증상 없이 정기 검진 시 발견되는 경우도 있다.[11]

부비동에서 발생한 콜레스테롤 육아종의 경우 부비동의 자연공이 폐쇄되었을 때 단순한 환기 장애 및 배설 장애로 점액낭종이 발생하고 외상에 의한 출혈이 동반되면 콜레스테롤 육아종이 된다고 하나 아직 명확한 발병기전이 밝혀지

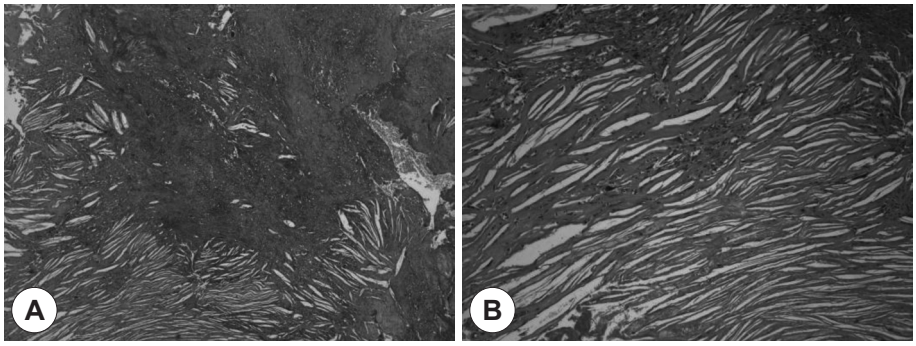

Fig. 3. Histopathological examination of the lesion of demonstrated numerous cholesterol clefts with surrounding foreign body giant cells, inflammatory cells (A: H&E ×40, B: H&E ×100).

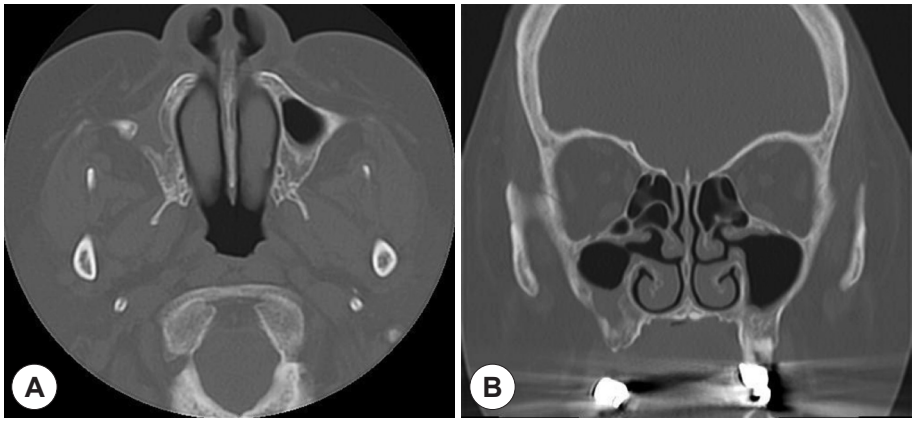

Fig. 4. Postoperative (6 months) paranasal sinus CT scans. Axial (A) and coronal (B) view of paranasal sinus CT scan at postoperative 6 months later notes no visible previously noted cystic lesion in right maxillary sinus except for post-op change.

Table 1. Cases of cholesterol granuloma of sinonasal region reported in Korea

Number	Sex/Age	Chief complaint	Physical examination	Region	Operation	Reference
1	M/18	NO (R), Ophthalmalgia (R)	Exophthalmos (R)	Ethmoid	CL-op	22)
2	M/32	NO (B)	MPR (B), ITH (R), SD (L)	Maxilla	CL-op	23)
3	F/50	Diplopia	ITH (B)	Sphenoid	CL-op, ESS	15)
4	F/63	Medial canthus discomfort (R)	SD (L)	Ethmoid	ESS	5)
5	M/38	NO (R)	MPR (R)	Maxilla	ESS	5)
6	M/29	NO (R)	Polyp (R)	Maxilla	CL-op, ESS	5)
7	M/56	NO (R)	Polyp (R)	Maxilla	CL-op, ESS	5)
8	F/73	NO (R), Maxilla foreign body sense (R)	MPR	Maxilla	CL-op, ESS	5)
9	M/42	NO (B)	Septal perforation, MPR (B), Middle meatus mass (R)	Maxilla	ESS	24)
10	F/75	Visual disturbance (B)	Superior turbinate lateralization (B)	Sphenoid	ESS	25)
11	F/76	Orbital swelling (R)	MPR	Frontal & Ethmoid	ESS	26)
12	F/52	Impaired vision (R)	SD (R)	Ethmoid	ESS	27)
13	M/44	Medial canthal mass (R)	Middle meatus mass (R)	Ethmoid	ESS	27)
14	F/68	Glabellar mass (R)	MPR (B)	Frontal	ESS	28)
15	M/61	Headache, Ophthalmalgia (B)	MPR (B), CL-op status	Sphenoid	ESS	29)
16	M/67	Dizziness	CL-op status	Sphenoid	CL-op	30)
17	−/49	Headache	Reduction in visual acuity	Sphenoid	ESS	30)
18	M/22	NO	SD (L), ITH (R)	Septum	ESS	31)
19	F/74	Headache	Septal bulging (L)	Septum	ESS	32)

R: Right, L: Left, B: both, NO: Nasal Obstruction, CL-op: Caldwell-Luc operation, ESS: Endoscopic Sinus Surgery, MPR: Muco-Purulent Rhinorrhea, ITH: Inferior Turbinate Hypertrophy, SD: Septal Deviation

지는 않았다.[9] 본 증례의 경우 전산화단층촬영에서 관찰되는 우측 상악동의 중격 형성과 폐쇄된 부비동 내 만성적인 염증이 지속되면서 침전된 콜레스테롤 결정체 등이 육아종의 발병에 기여한 것으로 생각되며 이에 동반된 감염으로 인하여 우측 뺨의 부종이 발생했으리라 짐작된다.

방사선학적 검사로는 단순촬영, 전산화단층촬영, 자기공명영상 등을 시행하는데 단순촬영상 부비동의 혼탁, 연조직 음영의 증가, 주위 골조직의 미란 등이 관찰되나 확진에 도움이 되지는 않는다. 전산화단층촬영상 뇌 조직과 같은 음영으로 조영증강이 되지 않으며 경계가 뚜렷하고, 주위 골조직에 높은 해상력을 보이나 콜레스테롤 육아종과 점액종의 감별은 어렵다.[10)15)] 자기공명영상에서는 콜레스테롤과 헤모글로빈의 대사산물인 혈철소로 인해 T1, T2 영상에서 모두 고음영을 나타난다.[10)15)16)] 본 증례의 경우 처음에는 치성낭종을 의심하였으나 부비동 전산화단층촬영에서 상악동 중격 형성과 상악동의 외측벽이 밀려있는 소견이 관찰되어 다른 질환을 감별하기 위해 자기공명영상을 촬영하였고 우측 상악동의 비균일 신호강도를 보이는 치원성 종양이 의심되는 소견 외에는 특이점이 없어 술 전 진단은 어려웠다. 자기공명영상은 단순 부비동염과 종양이나 주위 연부조직을 구분하는데 도움을 주어 수술 범위를 결정하는데 적당한 검사 방법이라 할 수 있고 전산화단층촬영은 골 파괴 부위를 정확히 관찰할 수 있어 진단 시 또는 술 후 추적검사 방법으로 좋다.[17)] 치성각화낭종의 방사선학적 소견은 단방성이거나 잘 경계 지어진 변연을 보이는 다방성으로 보이고, 인접 치아를 흡수시키기보다는 변위시키는 특징을 보인다.[12)]

콜레스테롤 육아종의 육안적 병리소견은 대개 고형이나 노란색을 보이며, 녹색 또는 갈색의 액체를 가지는 낭종의 형태를 보이기도 한다. 혈철소의 침착이 많으면 암갈색, 지방이 많으면 노란색, 반짝이는 표면은 콜레스테롤 결정체 때문이다.[18)] 조직병리학적으로는 거대세포, 염증세포, 헤모시데린과 콜레스테롤을 함유한 대식세포 등을 관찰할 수 있으며 상피층과 내피층은 관찰할 수 없다.[4)5)] 콜레스테롤 육아종은 특징적인 병리조직학적 소견에 의해 진단이 가능하며, 임상증상이나 이학적 소견은 크게 도움을 주지 못한다. 본 증례의 경우에도 술 전 내시경 소견과 방사선학적 소견으로는 콜레스테롤 육아종을 의심할 수 없었으며 술 후 병리학적 소견을 통해 최종적으로 진단되었다. 치성각화낭종의 조직학적 소견은 5~6층의 얇은 이행상피나 편평상피로 구성되어 내부는 각화현상이 일어나 각화산물로 채워져 있을 수

있다.[13] 상피는 감염되지 않는 한 얇고 고도의 분화를 보이며 그물능선(rete ridges)은 드물다. 상피는 결체조직과 명확히 분리되고 결체조직내에는 유사한 상피도가 포함되어 자낭포를 이루기도 한다.[14]

콜레스테롤 육아종의 치료 원칙은 병변의 완전한 제거와 함께 부비동의 환기 및 배출을 도모하는 것이다. 상악동에 발생한 콜레스테롤 육아종의 경우, 과거에는 Caldwell-Luc 수술과 같은 근치수술이나 비외접근법을 시행하였으나, 최근에는 해부학적 위치에 따라 내시경적 접근이 불가능한 경우를 제외하고는 비내시경적 개방술로 적절한 치료 효과를 얻은 증례들이 보고되었다.[4][16] 재발의 방지를 위해 완전한 절제술과 조대술 중 어느 것이 가장 좋은 방법인가에 관해서는 논란이 있으나 조대술의 경우 Silastic 스텐트와 배액관을 이용하여 많은 성공을 거둔 사례가 보고되었다. 2002년 Brackmann 등은 스텐트를 사용하였을 경우에는 콜레스테롤 육아종의 재발이 없었고, 스텐트를 삽입하지 않았을 경우에는 30%의 재발률을 보인다고 보고했다.[19] 이와 반대로, Mosnier는 스텐트의 폐색에 의해 이차적으로 재발이 발생하는 것이 가장 많다고 보고했다.[20] Georgalas 등은 병변 위치의 중요성에 대해서 발표했는데, 접형동 후벽에 인접해 있다면 조대술이 더 성공적일 수 있고 내시경을 통한 접근이 용이하여 비강과 부비동의 섬모 운동을 통한 배수가 가능하다고 강조했다.[21] 치성각화낭종은 외과적 적출술 후 재발율이 2.5~62.5%로 다양하며 악성변형이 보고되기도 하고 낭종보다는 양성종양과 같은 방법으로 치료해야 한다고 보고되기도 한다. 이러한 재발율의 차이는 관찰기간, 치료방법, 술자의 능력, 병소의 크기, 연구증례의 수등에 따라서 나타난 것으로 보고되었다. 또한 낭종벽이 얇고 찢어지기 쉬우며 자낭포가 존재하는 경우가 많아서 낭종벽을 한꺼번에 완전히 제거하기 어려워 외과적 적출술후 화학적 처치법 이용, 골벽의 공격적 소파술, 냉동치료법과 bur를 이용한 골벽절제술 등이 제시되었으나 외과적 적출술은 아직도 가장 일반적인 치료법으로 받아들여지고 있다.[11] 본 증례의 경우 상악동 팽창과 함께 외측벽이 밀려있는 소견을 보여 Caldwell-Luc 접근법으로 병변과 동내 점막을 완전히 제거하였다. 병변의 제거와 지속적인 환기 및 배출을 도모함으로써 재발의 위험성을 낮출 수 있을 것으로 생각되며 술 후 1년까지 비내시경 검사상 우측 상악동의 환기는 잘 유지되었고 별 다른 합병증 없이 추적 관찰 중이다.

중심 단어 : 콜레스테롤 육아종 · 상악동.

REFERENCES

1) Eijpe AA, Koornneef L, Verbeeten B Jr, Peeters FLM, Zonneveld FW. Cholesterol granuloma of the frontal bone: CT diagnosis. J Comput Assist Tomogr 1990;14:914-7.
2) Hellquist H, Lundgren I, Olofsson J. Cholesterol granuloma of the maxillary and frontal sinuses. ORL 1978;46:153-8.
3) McNab AA, Wright JE. Orbitofrontal cholesterol granuloma. Ophthalmology 1990;97:28-32.
4) Manasse P. Ueber Granulations geschwulste mit Fremdkoerrie-senzellen. Virchows Arch 1894;136:245.
5) Kim JH, Kim MG, Yoo KS, Lee BJ. Cholesterol granuloma of the paranasal sinuses: Report of five cases. Korean J Otolaryngol 2000;43:234-8.
6) Rath-Wolfson L, Talmi YP, Halpern M, Levit I, Zohar Y, Gal R. Cholesterol granulomas of the maxillary sinus presenting with nasal obstruction. Otolaryngol Head Neck Surg 1993;109:956-8.
7) Dinesh SF, Simon EP, John XO. Pathogenesis of orbital cholesterol granuloma. Clinical and Experimental Ophthalmology 2003;31:78-82.
8) Graham J, Michaels L. Cholesterol granuloma of the maxillary antrum. Clin Otolaryngol 1978;3:155-60.
9) Milton M, Bickerton RC. A review of maxillary sinus cholesterol granuloma. Brit J Oral Maxillofac Surg 1986;24:293-9.
10) Butler S, Grossenbacher R. Cholesterol granuloma of the paranasal sinuses. J Laryngol Otol 1989;103:776-9.
11) Choi YS, Lee HC, Joo M. Odontogenic keratocyst in the maxillary Sinus. Maxillofac Plast Reconstr Surg 2002;24(1):61-64.
12) Panders AK. Haddlers HN. Solitary keratocysts of the jaws. J Oral Surg 1969;27:931-8.
13) Crowley TE, Kaugars GE, Gunsolley JC. Odontogenic keratocysts: a clinical and histologic comparison of the parakeratin and orthokeratin variants. J Oral Maxillofac Surg 1992;50:22-6.
14) Zachariades N, Papanicolaou S, Triantafyllou D. Odontogenic keratocysts: review of the literature and report of sixteen cases. J Oral Maxillofac Surg 985;43:177-82.
15) Min YG, Jung HW, Yu WS, Kim IT. A case of cholesterol granuloma of the sphenoid sinus. Korean J Otolaryngol 1991;34:1237-41.
16) Dilek FH, Kiriş M, Uğraş S. Cholesterol granuloma of the maxillary sinus. A case report. Rhinology 1997;35(3):140-1.
17) Hartman JM, Stankiewicz JA, Maywood IL. Cholesteatoma of the paranasal sinuses: Case report and review of the literature. Ear Nose Throat J 1991;70(10):719-25.
18) Park KH, Koh JW, Kim SW. Clinical features of cholesterol granuloma in temporal bone. Korean J Otolatyngol 1997;40:513-9.
19) Brackmann D E, Toh E H. Surgical management of petrous apex cholesterol granulomas. Otol Neurotol 2002;23(4):529-33.
20) Mosnier I, Cyna-Gorse F, Grayeli AB, Fraysse B, Martin C, Robier A, et al. Management of cholesterol granulomas of the petrous apex based on clinical and radiologic evaluation. Otol Neurotol 2002;23(4):522-8.
21) Georgalas C, Kania R, Guichard JP, Sauvaget E, Tran Ba Huy P, Herman P. Endoscopic transsphenoidal surgery for cholesterol granulomas involving the petrous apex. Clin Otolaryngol 2008;33(1):38-42.
22) Lim GS, Kim SW, Kwon SH, Yoon YJ. A Case of Cholesterol Granuloma of the Ethmoid Sinus. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 1990;33(3):628-32.
23) Uhm CS, Jang BS, Shin SL, Yoon HY, Chun IG. A Case of Cholesterol Granuloma of the Maxillary Antrum. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 1990;33(5):1012-5.
24) Kim YD, Lee JE, Kwak DS, Song SY. Transnasal Endoscopic Treatment of Cholesterol Granuloma of Bilateral Maxillary Sinuses after

Facial Trauma. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2002; 45(4)408-11.
25) Jun JH, Park JY, Yeo CK, Shon KR. A Case of Cholesterol Granuloma of the Sphenoid Sinus. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2002;45(3):293-5.
26) Cho CG, Cho JG, Jung JR, Park JY. A Case of Cholesterol Granuloma of the Frontal and Ethmoid Sinus. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2004;47(5):483-5.
27) Park SW, Min IK, Park CH, Rha KS. Two Cases of Cholesterol Granuloma in Ethmoid Sinuses. J Rhinol 2003;10(1,2):53-6.
28) Baek HI, Kim WH, Park BC, Choi DJ. A Case of Management of Cholesterol Granuloma in Frontal Sinus by Endoscopic Marsupialization. J Clinical Otolaryngol 2007;18(1):92-5.
29) Kim SW, Kang JH, Kim YJ, Kim CD. Multiple Cholesterol Granuloma Involving the Paranasal Sinus: A Case Report. J Rhinol 2008; 15(1):69-73.
30) Kim DH, Lee SK, Kim CH, Cho HJ. Radiologically Unusual Presentation of Cholesterol Granuloma in the Sphenoid Sinus. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2015;58(9):641-5.
31) Koo SK, Kim YJ, Jung SH, Son H. Cholesterol Granuloma of Nasal Septum. J Rhinol 2015;22(1):44-6.
32) Lee IH, Nam IC, Jeong JW, Kim DH. A Case of Cholesterol Granuloma in the Nasal Septum. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2016;59(1):49-52.