

A Case of Auricular Schwannoma After Trauma

Bo Young Kim¹, Jung Yeon Kim², and Young-Soo Chang¹

Departments of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery and Pathology, Sanggye Paik Hospital, College of Medicine, Inje University, Seoul, Korea

외상 후 발생한 이개 신경초종 1예

김보영1 · 김정연2 · 장영수1

인제대학교 의과대학 상계백병원 1이비인후과학교실, 2병리학교실

Received September 29, 2022 November 15, 2022 Revised Accepted November 16, 2022 Address for correspondence

Young-Soo Chang, MD, PhD Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Sanggye Paik Hospital, College of Medicine, Inje University, 1342 Dong Il-ro, Nowon-gu, Seoul 01757, Korea

Tel +82-2-950-1104 Fax +82-2-935-6220 E-mail yschang83@gmail.com

Schwannoma is a slowly-growing, benign tumor that originates from the Schwann cell and is rarely found in the auricle. In this article, we describe a 20-year-old male patient with an approximately 2 cm auricular mass located in the antitragus of the left ear. The mass was slowlygrowing following an auricular trauma. The mass was completely removed by local excision and the histopathologic review confirmed the diagnosis as an auricular schwannoma. Characteristic immunohistochemical findings may be helpful in differential diagnosis of other tumors. Herein, we present with a literature review a rare case of auricular schwannoma following a trauma. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(3):183-6

Keywords Ear auricle; Neurilemmoma; Trauma.

서 롰

신경초종(schwannoma)은 신경초세포(Schwann cell)에서 기원하여 서서히 성장하는 양성 종양으로 전체 신경초종의 25%-45%가 두경부 영역에서 발생한다.1-3 시신경과 후각신 경을 제외한 신체 내 어느 신경 분지에도 생길 수 있으며, 외 이에서 발생하는 경우 대부분 외이도에서 발생하며, 극히 일 부에서 이개(auricle)에서 발생한다.2 현재까지 전 세계적으로 문헌상 보고된 사례는 9예로 확인되며,²⁾ 국내외에 대이주(antitragus) 신경초종이 발견된 사례는 보고된 바 없다. 저자들 은 이개 외상 후 서서히 커지는 대이주 신경초종 1예를 경험 하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

증 례

20세 남환이 5년 전부터 점차 커지는 좌측 이개의 종물을 주소로 내원하였다. 환자는 5년 전 농구공에 이개를 수상하 여 이개 부종이 발생하였다가 완전히 호전되었으나, 이후 5년 에 걸쳐 서서히 대이주 부분의 부종이 발생하였다고 보고하 였다. 내원 시 시행한 이학적 소견상 좌측 이개의 대이주 부 분의 통증을 동반하지 않은 종물이 관찰되었으며, 종물의 일 부는 다소 단단하였고 피부는 정상 소견이었다(Fig. 1). 외이 도 및 고막에 특이소견은 관찰되지 않았다. 과거력상 특이소 견은 없었다. 측두골 전산화단층촬영에서 좌측 대이주에 국 한된 연부조직 음영이 관찰되었으나 외이도 골부, 중이, 내이 및 유양동은 정상 소견이었다. 수술 전 추정 진단은 이개의 켈로이드 또는 연골종(chondroma)이었다.

국소마취하에 대이주 피부 절개를 시행하여 매끈한 표면의 연분홍색 종물을 관찰하였고. 종물의 하방에서 대이주 연골 의 골절이 확인되었다. 종물은 비교적 경계가 명확하였고, 주 변 조직과의 유착이 관찰되지 않았으나 대이주 연골의 골절부위와는 일부 유착이 관찰되어 연골막으로부터 유착부위를 완전하게 절제하였다(Fig. 2). 이후 피부를 봉합하여 수술을 종료하였다. 병리조직학적 검사상 1.8×1.1×0.3 cm의 종물로 hematoxylin and eosin 염색에서 상호 교차하는 작은 다발형태의 방추체 세포들이 관찰되었다. 면역조직화학염색에서 S-100 단백질에 양성반응을 보이는 신경초종으로 확진되었다(Fig. 3). 수술 후 7일 후 봉합사를 제거하였고, 특별한 합병증은 관찰되지 않았다.

고 찰

이개 신경초종은 특별한 증상 없이 서서히 자라는 양성 종양으로, 이개의 양성 종물 중에서도 매우 드물게 보고되고 있다. 현재까지 문헌상 보고된 9예의 이개 신경초종 중 8예에서는 정확한 선행요인이 밝혀지지 않았으며, 1예에서는 피어성에 의한 외상에서 기원한 신경초종이라고 보고하였다. ^{2.4}이개 신경초종으로 진단 및 치료를 진행한 환자들은 평균 3.17년(6개월-10년)의 유병기간과 19.61 mm (7-30 mm)의 크기를 나타냈으며 대부분의 이개 신경초종은 이개의 전면부에 발생하였다. 본 증례에서는 특이 병력이 없던 환자가 이개 외상 이후 약 5년에 걸쳐 점차 크기가 증가하는 종물을 주소로 내원하였고, 수술 시 대이주 연골 골절부를 따라 신경초종이 관찰되었음을 고려할 때, 외상으로 인한 연골의 골절과 동반된 피하 감각 신경의 손상에 의하여 발생한 신경초종으로 추정된다.

신경초종은 신경초세포에서 기원한 종양으로, 유전자 변이 또는 말초신경계의 외상에 의하여 유발될 수 있다. 신경섬유

Fig. 1. Preoperative examination shows an approximately 2 cm round mass in the left antitragus of auricle with suspicious of antitragal cartilage fracture (arrow).

종증(neurofibromatosis)에서는 Nf2 종양 억제 유전자 변이로 인한 신경초세포의 과증식으로 신경초종이 유발됨이 보고되었다. 최근에는 외상으로 인한 신경초종의 발병에 대한다양한 연구가 진행되고 있다. 신경다발에 압박 또는 절단 외상 발생 후 신경초세포의 재분화 과정에서 주변의 염증이나축삭돌기 신호의 영향으로 신경초세포의 과증식이 발생하는 것으로 추정되고 있다. ⁶

이개 신경초종의 수술 전 신체검진으로는 다소 단단하고, 압박통증을 느끼지 않으며 때로는 가동성이 있는 병변을 나타내는 것이 특징이다. 캡슐을 잘 형성하는 특징이 있으며 피부의 궤양이나 다른 변화는 동반되지 않는다. 본 증례에서는 연골부의 골절이 동반되어 종괴의 가동성이 다소 제한되었으나, 전반적으로 단단하였으며 정상 피부 소견을 나타냈다. 수술 전 영상 검사로써 컴퓨터단층촬영은 종괴가 외이도를 침범하였을 경우 주변 구조물의 손상이나 종물의 범위를 판정하는 데 도움이 될 수 있으나, 이개에 국한된 경우에는 감별진단에 큰 도움이 되지는 않는다.⁷⁾ 일부 문헌에서는 수술 전세침흡입검사를 시행하였으나 정확한 결과를 얻을 수 없었고 최종 진단은 병리조직검사를 통하여 확인하였다고 보고하였다.⁸⁹⁾

이개에서 발생하는 종물 중 가장 흔한 종류는 표피낭(epidermal cyst)으로서 약 25%를 차지한다.¹⁰⁾ 그 외에는 비후 흉터(hypertrophic scar), 섬유조직(fibrous tissue), 덧귀(accessory ear), 만성 염증, 모반(nevus), 켈로이드(keloid), 혈관종(angioma) 등이 존재한다. 이개 신경초종은 섬유종, 연골종, 평활근종(leiomyoma) 등 다른 연부 조직 종양과 감별진단이 필요하며, 상기 종물들은 육안적으로는 감별이 쉽지 않으므로 반드시 병리조직학적으로 감별이 필요하며, 일부 종



Fig. 2. Intraoperative finding of the left auricle. The tumor are connected with antitragal cartilage fracture lesion (arrow).

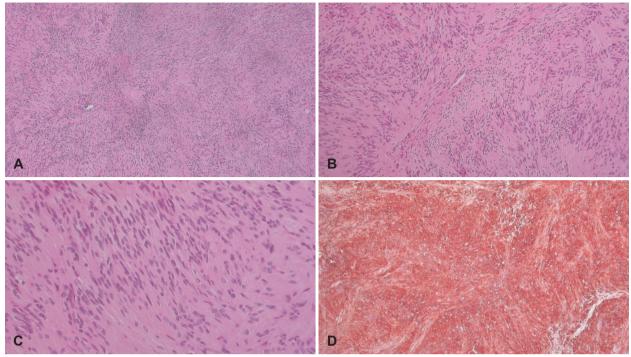


Fig. 3. Histopathologic findings of the tumor. A and B: Hyperellular Antoni-A area with nuclear palisading and alternating hypocellular Antoni-B area is noted (A: H&E, ×40 .B: H&E, ×100). C: Tumor cells show elongated and wavy nuclei and tapered ends (H&E, ×200). D: Immunohistochemical staining for S-100 protein revealed brown colored diffuse positive staining (×100). H&E, hematoxylin and eosin.

물의 감별진단을 위해서는 면역조직화학적 지표들이 도움이 된다. 신경초종의 주요 병리소견은 길쭉한 핵을 가진 방추체 세포의 집합체들이 일렬로 늘어선 것으로, 세포가 밀집한 부 위를 Antoni-A 지역(Verocay body), 세포가 듬성듬성하여 불규칙하게 배열된 부위는 Antoni-B이다. 신경초세포에서 기원한 종양은 S-100 단백질을 이용한 면역조직화학염색에 서 세포질과 핵이 염색되는 양성소견을 보이고, 데스민(desmin)이나 평활근액틴(smooth muscle actin)을 이용한 면역 조직화학염색에서는 음성소견을 보인다.11)

이개의 신경초종은 수술적 완전 절제를 통하여 치료할 수 있다.20 수술 시 종괴는 캡슐을 형성하며 주변의 연골막이나 연골, 피부와의 유착이 강하지 않아 비교적 잘 박리되며 캡 슐을 포함한 완전 절제 시 재발이나 악성으로의 변화는 보고 되지 않았다. 본 증례에서 종괴는 주변 피부 조직과의 유착은 관잘되지 않았으나, 골절된 연골막 주변부와 일부 유착이 관 찰되어 이를 유의하며 완전 절제를 시행하였다.

이개 신경초종은 이개에서 발생하는 종물 중 매우 드물지 만, 외상 병력 등이 있으며 서서히 자라는 가동성 있는 종괴 가 관찰될 경우 고려해야 하는 진단이다. 최근 저자들이 대 이주 신경초종을 치료한 경험을 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

Acknowledgments

None

Author Contribution

Conceptualization: Young-Soo Chang. Data curation: Jung Yeon Kim, Young-Soo Chang. Writing-original draft: Bo Young Kim, Young-Soo Chang. Writing-review & editing: Jung Yeon Kim, Young-Soo Chang.

ORCIDs

Bo Young Kim https://orcid.org/0000-0001-6240-1465 Jung Yeon Kim https://orcid.org/0000-0002-7539-9242 Young-Soo Chang https://orcid.org/0000-0003-4491-5088

REFERENCES

- 1) Colreavy MP, Lacy PD, Hughes J, Bouchier-Hayes D, Brennan P, O'Dwyer AJ, et al. Head and neck schwannomas--a 10 year review. J Larvngol Otol 2000:114(2):119-24.
- 2) Dokania V, Mayashankar V, Kothari S, Doiphode A, Bhargava S, Garg A. Auricle schwannoma: Presentation of a rare case and review of existing literature. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg 2021;73(4):523-9.
- 3) Leu YS, Chang KC. Extracranial head and neck schwannomas: A review of 8 years experience. Acta Otolaryngol 2002;122(4):435-7.
- 4) Thakur K, Sharma SK, Raina R, Gupta VD. Auricular schwannoma: A rare presentation. Int J Otorhinolaryngol Clin 2013;5(3):166-8.
- 5) Truong K, Ahmad I, Jason Clark J, Seline A, Bertroche T, Mostaert B, et al. Nf2 mutation in schwann cells delays functional neural recovery following injury. Neuroscience 2018;374:205-13
- 6) Helbing DL, Schulz A, Morrison H. Pathomechanisms in

- schwannoma development and progression. Oncogene 2020;39(32): 5421-9.
- Kim YH. Massive schwannoma originating from the external auditory canal invading the mastoid. Ear Nose Throat J 2019;98(1): 25-7
- 8) Bajpai M, Astras L, Damitri H. Neurilemmoma of external ear, confirmed by immunohistochemistry-a telepathological communication between cyprus and India. J Ayub Med Coll
- Abbottabad 2016;28(4):836-7.
- 9) Chhetri SS, Koirala B. Auricular schwannoma—A rare presentation. J Kathmandu Med Coll 2017;6(3):123-5.
- 10) Jung SY, Kim MG, Boo SH, Yeo EK, Kwon C, Lee SK, et al. Clinical analysis of auricular benign masses. Korean J Audiol 2012;16(1):10-3.
- 11) Topal O, Erbek SS, Erbek S. Schwannoma of the external auditory canal: A case report. Head Face Med 2007;3:6.