

염증성 용종으로 오인되었던 외이도의 통풍성 결절 1예

윤명재¹ · 오혜진¹ · 구본승¹ · 송영욱¹ · 이준호² · 이은봉¹

서울대학교 의과대학 ¹내과학교실, ²이비인후과학교실

Tophaceous Gout Misidentified as Inflammatory Polyp in External Auditory Canal

Myeong Jae Yoon¹, Hye Jin Oh¹, Bon Seung Ku¹, Yeong Wook Song¹, Jun Ho Lee², Eun Bong Lee¹

Departments of ¹Internal Medicine and ²Otolaryngology, Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

Gout is an inflammatory disorder in which urate crystals are deposited in the joints or soft tissues causing severe inflammation and pain. Urate crystals usually deposit in the joints, and sometimes in the extra-articular sites. A 67-year-old woman visited the otolaryngology clinic due to otalgia and discharge from the ear. She had experienced recurrent arthritis in the left second metatarsophalangeal joint from five years ago. She visited the otolaryngology clinic of our university hospital due to persistent inflammation in the ear canal despite treatment with antibiotics. An otoscopic examination showed a polyp-like mass near the eardrum. Computed tomography scan of temporal bone showed thickening of the eardrum and increased soft tissue density in the external ear canal. On histologic examination the polyp was finally found to be a urate crystal mass. She is now in a good state with urate lowering therapy. We report on a Korean case of tophaceous gout in the external ear canal that was misidentified as an inflammatory polyp. (*J Rheum Dis* 2015;22:25-28)

Key Words. Gout, Polyps, Ear canal

서 론

통풍은 고요산혈증과 그로 인해서 요산결정이 관절 및 연부조직에 침착하여 염증 및 통증을 일으킬 수 있는 질환이다. 일반적으로는 요산결정이 관절부위에 침착하여 관절 통증을 일으키는 경우가 흔하며, 신장이나 요로계에 침범하여 요로 결석을 일으키는 경우가 있다. 그러나 이러한 전형적인 부위 외에 피부나 얼굴부위를 침범하는 경우도 드물게 있다. 귀에 침범하는 통풍도 있으나, 대부분 귓바퀴에 통풍 결절(tophi) 형태로 침범한다. 귀 안에 통풍 결절이 보고된 증례는 외국에서는 드물게 있었으나 국내에서는 아직 보고된 적이 없다[1,2]. 저자들은 귀안의 염증

성 결절로 착각되었던 통풍 결절의 사례를 경험하여 국내에서는 최초로 보고하는 바이다.

증례

67세 여자가 귀 안이 답답한 증상과 통증, 이분비물을 주소로 내원하였다.

내원 5년 전부터 반복적으로 왼쪽 두 번째 중족지관절의 부종을 동반한 통증을 겪어 왔던 환자로, 관절통은 수일 정도 지속되다가 호전되는 양상이었으며, 진통제 처방으로 통증이 호전되기도 하였다. 그러나 이전에 통풍 관절염으로 진단받지는 않았었다. 내원 4개월 전부터 시작된 귀

Received : February 21, 2014, **Revised :** (1st) March 31, 2014, (2nd) April 10, 2014, **Accepted :** April 11, 2014

Corresponding to : Eun Bong Lee, Department of Internal Medicine, Seoul National University College of Medicine, 103 Daehak-ro, Jongno-gu, Seoul 110-799, Korea. E-mail : leb7616@snu.ac.kr

pISSN: 2093-940X, eISSN: 2233-4718

Copyright © 2015 by The Korean College of Rheumatology. All rights reserved.

This is a Free Access article, which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

안의 답답한 증상과 통증 및 이분비물의 소견으로 본원 이비인후과 외래로 처음 내원하였다.

가족력 상 특이 병력 없었으며, 전업주부로 흡연력이나 음주력은 없었다. 내원 1년 전 유방암의 수술 병력이 있었으나 고혈압, 당뇨, 비만 등의 병력은 없었다. 요로 결석이나 신결석의 병력은 없었다.

내원 당시 혈압 136/81 mmHg, 맥박 109회/분, 호흡수 20회/분, 체온은 36.6°C였다. 환자의 키는 155.1 cm, 몸무게는 49.2 kg, 체질량지수(body mass index)는 20.45로 정상 체중이었다. 외부에서 보이는 귓바퀴에 이상 소견은 없었으며, 공막에 황달이나 결막 창백도 없었다. 흉부검사에서 호흡음과 심음은 정상이었으며, 복부의 촉진 소견이나 장음 소견도 정상 상태였다. 이비인후과 외래 초진 당시에는 종창이나 압통 등의 관절염 소견은 확인되지 않았다. 그러나 2개월 뒤 류마티스내과 외래 초진 당시에는 왼쪽 두 번째 중족지관절의 통증이 있으면서 약간의 부종과 압통의 동반이 있었다. 그 외 피부 발진이나 통풍 결절이 의심되는 피부 소견은 없었다.

내원 당시 검사 소견에서 백혈구는 4,180 cells/mm³, 혈색소 12.2 g/dL, 혈소판 246×10³ cells/μL였고, 적혈구 침강 속도(erythrocyte sedimentation rate)는 30 mm/h였다. 생화학검사에서 요산(uric acid) 4.9 mg/dL, aspartate aminotransferase/alanine aminotransferase 23/21 IU/L, alkaline phosphatase 91 IU/L, 총 빌리루빈 0.5 mg/dL, 총 단백 7.1 g/dL, 알부민 4.5 g/dL, blood urea nitrogen/Cr 20/0.72 mg/dL, Na 121 meq/L, K 5.0 meq/L였다. HBsAg, anti-hepatitis C virus, human immunodeficiency virus, venereal disease research laboratory test는 음성이고, anti-HBs는 양성이었다.

이경 검사(external auditory canal otoscopy)에서 우측 외이도의 전벽부에 황색 용종 소견(Figure 1)이 발견되었



Figure 1. Otoscopic view of right external ear canal showed small polyp on the anterior wall of external ear canal and thickened tympanic membrane.

다.

방사선학적 검사 결과, 측두골 전산화 단층 촬영 검사(Figure 2)에서 우측 귀에 유양돌기염과 만성 중이염 소견과 함께 두꺼워진 고막 소견이 확인되었고, 고막 바깥쪽 외이도 부위에 연부조직 소견이 있었다. 좌측 귀에는 이상 소견이 없었다. 환자 발의 단순 방사선 사진에서는 양쪽 발의 첫 번째 중족지 관절에 경도의 무지외반증(hallux valgus) 소견과 경도의 골관절염 소견이 확인되었다. 발의 전산화 단층 촬영 소견에서는 양쪽의 첫 번째 중족지 관절에 퇴행성 관절을 시사하는 피질하 낭종과 통풍성 관절염을 시사할 수도 있는 골미란 소견이 확인되었다.

이비인후과 초진 후에 만성 중이염으로 진단받고, 경구 항생제 치료를 받았으나, 이후에 측두골 전산화 단층 촬영 결과(Figure 2) 고막근처의 연부조직 음영 소견이 확인되어 우측 귀에서 이경 검사하에 조직검사를 시행하였다. 처음에 시행한 조직검사의 소견은 육아조직만이 확인되었으며, 귀 안의 염증성 용종으로 진단하였다. 그러나 이후에도 우측 귀의 통증이 지속되고, 귀 안의 분비물 유출이 지속되어 초진일로부터 2개월 뒤에 입원하여 수술을 통해서서 귀 안의 용종을 제거하였다. 수술 후 재차 시행한 조직 검사 소견에서 통풍에 합당한 결절들이 확인되었다(Figure 3). 편광 현미경 검사를 통해서도 수술 후 조직의 결정이 바늘 모양의 음성 복굴절(negative birefrience)을 보이는 통풍 결정임을 확인할 수 있었다(Figure 4). 수술 후에도 우측 귀의 통증이 계속 있으면서, 왼쪽 두 번째 중족지관절 통증이 간간이 있어서, 수술 후 2주 뒤에 본원 류마티스내과 진료를 처음 받았다. 류마티스내과에서 colchicine 0.6 mg을 하루 1정씩 처방받았으며, 내과 초진 2주 후부터는 allopurinol

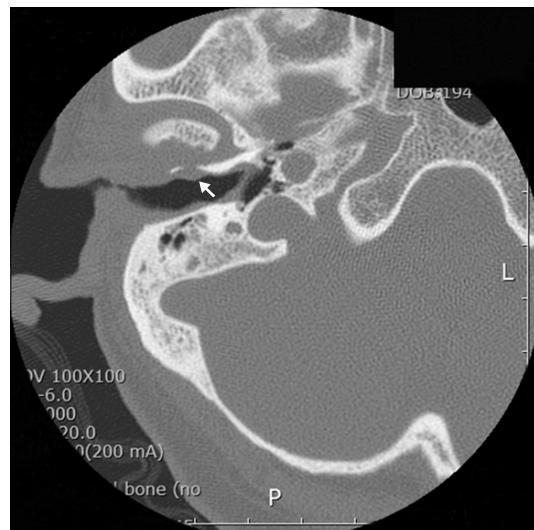


Figure 2. Computed tomography of right temporal bone showed soft tissue density in the external auditory canal. Arrow indicates polyp on anterior wall in the external auditory canal.

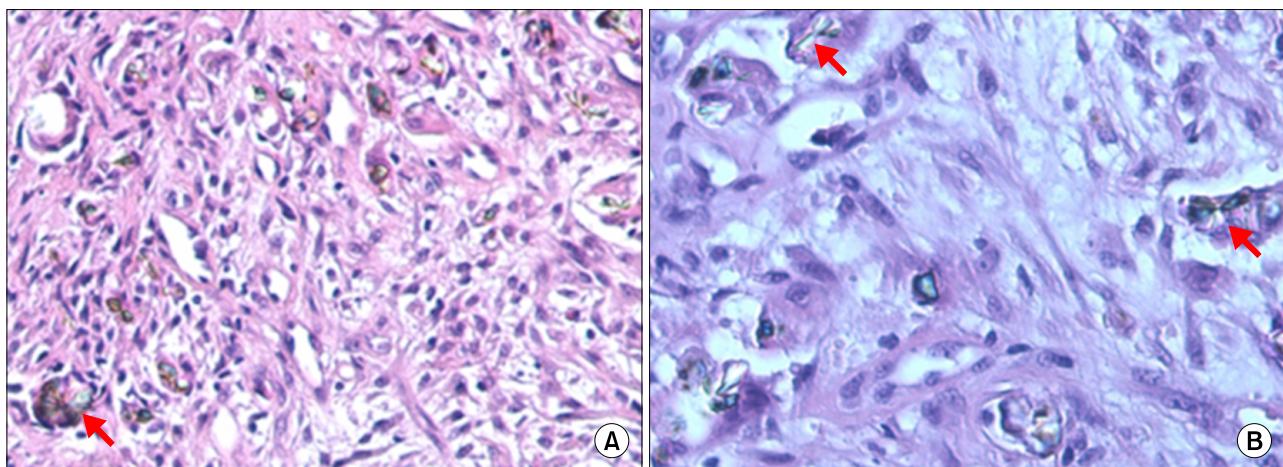


Figure 3. Histopathology of the polyp in external ear canal (postoperative biopsy, (A): H&E, $\times 100$; (B) H&E, $\times 200$) showed granulation tissue with needle shaped crystal structure. Arrow indicates urate crystal.

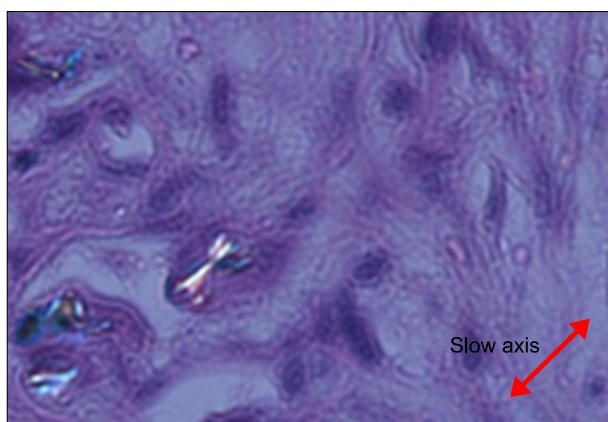


Figure 4. Polarized microscopic image showed negative birefringent needle-shaped crystals (H&E, $\times 400$).

100 mg을 하루 1정씩 처방받았다. 약물 처방 후 우측 발의 통증은 수일 내에 소실되었으며, 우측 귀의 통증도 감소하였고, 약물 치료 2개월째에는 귀의 통증도 모두 소실되었다. 환자의 처음 내원 시의 요산 수치는 4.9 mg/dL였으며, 이후에 환자의 외래 경과 관찰 기간 동안 3번의 추가적인 요산 검사를 실시했으나, 각각 4.2 mg/dL (이비인후과 초진 4개월 후), 4.0 mg/dL (초진 5개월 후), 3.5 mg/dL (초진 8개월 후)로 낮은 수치를 유지하였다. 류마티스내과 진료 2주 후(이비인후과 초진 10주 후)부터 요산 강하제인 allopurinol 100 mg을 유지하였다.

고 찰

통풍은 요산결정이 관절 및 조직에 침착하여 증상을 일으키는 질병이다. 대부분의 경우 임상 소견은 급성 관절염의 재발성 발작 형태로 나타나며, 드물게 요산이 관절 외

부위에 침착하는 경우도 있다. 두경부에도 침범할 수 있으며 기타 다양한 부위에도 통풍 결절이 침범할 수 있다고 알려져 있다. 이 중에서 귀를 침범하는 경우에는 외이 특히 귓바퀴 부위가 통풍 결절이 가장 흔하게 나타나는 부위 중 하나이다[3,4]. 그러나 귀속에서 통풍 결절이 발견되는 경우는 드물며, 외국에서 일부 증례가 보고된 적만 있다[1,2].

Reineke 등[1]은 오른쪽 귀의 청력 장애를 호소하는 66세의 여성에서 수술 후 조직 검사에서 중이 내의 통풍 결절을 확인한 증례를 보고한 바 있다. 이 환자는 수술 후에 청력 장애가 호전되었다. 이 환자는 청력 장애 증상 외에는 통풍을 시사하는 관절통의 병력이 없었고, 정상의 요산 혈증 소견을 보이며 통풍과 관련된 어떠한 유발 요소도 없었던 환자였다. Saliba 등[2]의 증례에서는 한쪽 귀의 멱念佛을 호소한 40세 남성에서 중이 내에 석회화된 덩어리를 확인하였고, 수술 후에 조직을 편광현미경 관찰하여 통풍으로 진단한 증례를 보고하였다. 이 환자에서도 통풍과 관련된 병력의 내용이 없었으나, 수술 후 조직 검사에서 통풍 결정을 확인한 경우였다. 그리고 이 환자에서도 마찬가지로 전도성의 청력 장애를 동반하였다.

국내에서는 저자들이 이 증례를 보고하기 전까지 귀 안의 통풍 결절이 보고된 증례가 없었다. 또한 외국의 증례들은 중이 내에 통풍이 확인된 것이었으나 본 사례는 귓바퀴 부위나 중이가 아닌 고막 부근의 외이도에서 통풍 결절이 확인된 특이한 증례이다. 이러한 소견은 수술 전에 이경 검사 및 전산화 단층 촬영 검사를 통해서 확인되었고, 이것은 위의 증례들과 비슷한 점이다. 그러나 중이의 침범이 없어서 전도성의 청력 장애는 유발하지 않았고, 대신에 귀 안의 통증 및 귀속 분비물 유출을 주증상으로 내원한 것은 위 증례들과 다른 점이다. 한편으로 정상의 요산 수치라든지 통풍과 관련된 다른 뚜렷한 유발 요소가 없었던

점은 위 증례들과 비슷하다.

통풍은 대부분 남성에서 발생하며, 여성에서 발생하는 경우에는 폐경 후 여성에서 발생하는 경우가 많다. 폐경 전 여성은 혈중 에스트로겐의 영향으로 인해서 남성보다 더 높은 요산의 신 배설률을 보이기 때문이다. 하지만 여성도 폐경기 이후에는 남성만큼 통풍이 발생할 수 있으며 본 증례도 폐경 후 환자였다[5,6]. 통풍 환자는 일반적으로 고요산혈증을 보이나 혈청 검사의 시기에 따라서 고요산혈증이 없을 수도 있다[7-9]. 본 증례에서는 초진 이후로 몇 번의 요산 수치 검사를 시행하였으나 진료 기간 동안에 요산 수치의 증가를 확인할 수는 없었다.

통풍은 요산결정 침착 질환으로서 전형적으로 세 가지 단계를 거친다. 무증상의 고요산혈증기, 급성 통풍 관절염, 종종 통풍결절을 동반하는 만성 통풍 관절염의 세 단계이다[10]. 본 환자는 수년 전부터 간헐적인 발가락의 관절염으로 통풍을 의심할 수 있는 소견이 있었으나, 이전에는 임상적으로 통풍을 진단받은 적은 없었다. 이 환자의 경우 귀 안의 통증과 이분비물 등의 귀의 증상으로 본원에 내원하여 치료받던 중 귀 안에서 통풍 결절이 확인된 경우이다.

결절성 통풍을 가진 환자에서 요산결정의 용해를 촉진시키기 위해서는 혈청 요산 수치를 충분히 낮추어 주어야 한다. allopurinol과 벤즈브로마론 등의 요산 강화제는 적절한 요산 농도를 달성하는 데 효과적이다[11]. 본 환자에서는 귀안의 결절을 중이염을 동반한 염증성 용종으로 오인하고 항생제 치료를 시도하였으나 증상의 호전이 없었다. 수술로 결절을 제거한 이후에도 귀속 통증이 남아 있었으나 조직검사에서 통풍 결절로 확인되어 이후에 allopurinol 등을 사용하면서 증상의 호전을 보였다.

요 약

저자들은 외이도에 통풍 결절을 보인 여성 환자를 경험하여 이를 보고한다.

CONFLICT OF INTEREST

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

REFERENCES

1. Reineke U, Ebmeyer J, Schütte F, Upile T, Sudhoff HH. Tophaceous gout of the middle ear. *Otol Neurotol* 2009; 30:127-8.
2. Saliba I, Bouthiller A, Desrochers P, Berthlet F, Dufour JJ. Tophaceous gout and pseudogout of the middle ear and the infratemporal fossa: case report and review of the literature. *J Otolaryngol* 2003;32:269-72.
3. Stark TW, Hirokawa RH. Gout and its manifestations in the head and neck. *Otolaryngol Clin North Am* 1982;15:659-64.
4. Forbess LJ, Fields TR. The broad spectrum of urate crystal deposition: unusual presentations of gouty tophi. *Semin Arthritis Rheum* 2012;42:146-54.
5. Antón FM, García Puig J, Ramos T, González P, Ordás J. Sex differences in uric acid metabolism in adults: evidence for a lack of influence of estradiol-17 beta (E2) on the renal handling of urate. *Metabolism* 1986;35:343-8.
6. Puig JG, Michán AD, Jiménez ML, Pérez de Ayala C, Mateos FA, Capitán CF, et al. Female gout. Clinical spectrum and uric acid metabolism. *Arch Intern Med* 1991;151:726-32.
7. Logan JA, Morrison E, McGill PE. Serum uric acid in acute gout. *Ann Rheum Dis* 1997;56:696-7.
8. Park YB, Park YS, Lee SC, Yoon SJ, Lee SK. Clinical analysis of gouty patients with normouricaemia at diagnosis. *Ann Rheum Dis* 2003;62:90-2.
9. Schlesinger N, Norquist JM, Watson DJ. Serum urate during acute gout. *J Rheumatol* 2009;36:1287-9.
10. Firestein GS BR, Gabriel SE, McInnes IB, O'Dell JR. Kelley's textbook of rheumatology. 9th ed. p. 1556, Philadelphia, Elsevier Saunders, 2013.
11. Perez-Ruiz F, Calabozo M, Pijoan JI, Herrero-Beites AM, Ruibal A. Effect of urate-lowering therapy on the velocity of size reduction of tophi in chronic gout. *Arthritis Rheum* 2002;47:356-60.