난치성 양성돌발두위현훈의 양상을 보이는 화골성 내이염 1예

한림대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

김동현, 성재문, 정휘경, 김창우

A Case of Labyrinthitis Ossificans Presenting as an Intractable Benign Paroxysmal Positional Vertigo

Dong Hyun Kim, Jae Moon Sung, Hwi Kyeong Jung, Chang Woo Kim

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Hallym University College of Medicine, Seoul, Korea

• Received Jul 14, 2017
 Revised Aug 6, 2017
 Accepted Aug 17, 2017

• Corresponding Author:
 Chang Woo Kim
 Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Kangdong Sacred Heart Hospital, 150 Seongan-ro, Gangdong-gu, Seoul 05355, Korea
 Tel: +82-2-2224-2279
 Fax: +82-2-482-2279
 E-mail: kcw5088@dreamwiz.com

• Copyright © 2017 by
 The Korean Balance Society.
 All rights reserved.

• This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://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.

Benign paroxysmal positional vertigo (BPPV) is the most common peripheral vestibular disorder. It is easily cured with canal repositioning maneuvers, but some patients are resistant to the repositioning maneuver and require surgical intervention. Labyrinthitis ossificans is the pathologic condition that fibrous tissue and new bone occupy the membranous labyrinthine space. It occurs as a sequela of inner ear inflammation resulting from diverse causes, mostly bacterial meningitis and otitis media. We describe here a 42-year-old female patient with refractory posterior semicircular canal (PSCC) BPPV and adhesive otitis media in same ear. Otoscopic examination revealed adhesive tympanic membrane without middle ear space and temporal bone computed tomography showed complete ossification of the labyrinth at the same side. We performed a canal wall down mastoidectomy and PSCC occlusion. The patient had complete resolution of paroxysmal vertigo and positional nystagmus, postoperatively.

Res Vestib Sci 2017;16(3):92-96

Keywords: Labyrinthitis; Ossification; Sensorineural hearing loss; Benign paroxysmal positional vertigo

서 론

난치성 양성돌발두위현훈(benign paroxysmal positional vertigo, BPPV)을 정의하는 공통적인 기준은 없지만, 많은 연구자들은 1년 이상의 반복적인 이석정복술에도 현훈이 지속하여 일상 생활에 어려움이 있는 경우로 정의하고 있다[1,2]. 정확한 진단 과정과 반복적인 이석정복술 및 약물 치료 등 보존적 치료를 통해 치료할 수 있지만, 후팽대부신 경절제술이나 반고리관 폐쇄술 등의 수술적 방법이 필요한 경우도 있다[2].

화골성 내이염(labyrinthitis ossificans)은 막성미로에 섬유 조직과 신생골이 생기는 질환으로 주로 내이를 침범하는 염증성 병변에 의한 합병증으로 발생하게 된다[3]. 화골성 내이염의 원인으로 세균성 뇌수막염이 가장 흔하며, 중이염이나 중양, 이경화증, 측두골 골절, 내이 출혈, 등골 절제술 등의 이과 수술도 화골성 내이염을 유발할 수 있는 것으로 보고 되었다[4]. 화골성 내이염은 화농성 내이염(suppurative labyrinthitis)이 생긴 후 수개월에서 수년이 지나면서 발생할 수 있기 때문에 대부분 예에서 사후 측두골 조직 절편 검사나 방사선학적 검사에서 우연히 발견되는 경우

Fig. 1. Photographs of case 1. (A) Otoscopic examination revealed an adhesive tympanic membrane. There was no middle ear space. (B) Audiologic examination revealed 70 dB for air conduction and 40 dB for bone conduction. (C) Bithermal caloric test demonstrated reduced vestibular response of 94% in the right ear. SPV, slow phase velocity. (D) Follow-up pure tone audiometry after one year later showed mild decrease of hearing threshold in the right ear.

가 많다[3-6].

본 연구에서는 난치성 BPPV 소견의 환자에서 뇌수막염의 과거력 없이 내이의 완전 골화가 발생한 예를 경험하고 치료했으며, 관련된 발생 기전의 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

42세 여자 환자가 1년여 전부터 시작되고 최근 4개월 동안 심해진 어지럼을 주소로 본원 신경과에서 BPPV로 진단 받고 3개월 동안 이석정복술 및 약물치료를 받다가 우측 귀에 이루가 발생해서 본과에 의뢰되었다. 환자는 6-7년 전부터 시작되어 서서히 진행되는 우측의 난청이 있는 상태였으며 간헐적으로 이루가 발생해서 개인병원에서 치료를 받은 적이 있었다. 어지럼은 회전성이었고, 주로 아침에 일어날 때 심하고 머리의 자세 변화에 따라 증상이 발생하는 양상이었으며 오심도 동반되었다. 과거력상 뇌수막염이나 다른 내과 질환은 없었으며 두부외상이나 수술 병력 및 환자가 기억하는 심한 어지럼도 없었다. 신체 검사상 우측 고막은 천공은 없었으나 고실 감각에 유착이 심한 상태였으며(Fig. 1A), Frenzel 안경을 이용한 안진검사에서 자발안진이나 주시안진, 두진후안진은 관찰되지 않았고, head roll 검사에서도 안진은 발생하지 않았으나 우측 Dix-Hallpike 검사에서 잠복기 없이 시계 반대방향으로 향하는 회선 성분과 상향안진이 10초 정도 발생했다. 누공검사는 음성이었고, 뇌신경검사나 소뇌검사, 보행검사에서 이상 소견은 관찰되지 않았다. 순음청력검사상 좌측은 정

상이었으나 우측은 기도청력 70 dB, 골도청력 40 dB였으며(Fig. 1B), 냉온교대 온도안진 검사에서 94%의 우측 반고리관 마비 소견이 관찰되었고(Fig. 1C) 경부 전정유발근전위 검사는 정상이었다. 측두골 단층촬영검사에서 우측 유양동 내에 연부 조직 음영이 있고, 이소골의 형태는 관찰할 수 없었으며 와우와 전정, 반고리관의 골성미로 형태는 유지되었으나 내부 림프액 음영은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 우측 이루에 대한 세균배양검사는 메치실린 내성 황색포도상구균(*methicillin resistant Staphylococcus aureus*)이 검출되었으며 항생제 투여를 시작했다. 만성 유착성중이염에 동반된 우측 후반고리관의 BPPV로 진단하고 우측 Epley 술기를 이용한 이석치환술을 1주일에 2회씩 8주간 반복적으로 시행했으나 Dix-Hallpike 검사에서 향지성과 회전성의 안진이 지속하였으며 어지럼도 호전되지 않았다. 환자의 이르는 좋아지는 양상이었으나 어지럼이 지속하여 유착성 중이염에 대한 수술과 후반고리관 폐쇄술을 계획했다. 개방형 유양돌기 절제술 후 드릴을 이용해서 후반고리관의 골벽을 제거했는데, 내부공간은 섬유조직과 일부 신경골이 채워져 있었으며 막성미로 내부에 미세한 공간이 관찰되었으나 림프액 유출은 확인할 수 없었다. 후반고리관의 팽대부까지 드릴을 진행했으며 팽대부 위치의 공간에 bone dust와 fibrin glue를 이용해서 폐쇄하고 고실성형술 후 수술을 종료하였다. 수술 직후 자발안진은 관찰되지 않았으며 수술 후 2주까지 자세 변화에 따라 어지럼을 호소했으나 Dix-Hallpike 검사 시 안진은 관찰되지 않았으며 수술 후 4주가 지난 뒤부터는 어지럼을 호소하지 않았다. 1년

Fig. 2. Photographs of computed tomography scan. Axial (A) and coronal (B) images showed soft tissue density in the mastoid antrum and osseous obliteration of most of the cochlea (arrowhead), vestibule, and semicircular canals (arrows). L, left.

후 시행한 순음청력검사에서 기도청력 80 dB, 골도청력 55 dB의 소견을 보였으며 BPPV 소견은 없는 상태였다.

고 찰

화골성 내이염은 주로 화농성 내이염의 합병증으로 발생하게 되며 특히 세균성 뇌수막염과 화농성 중이염이 주된 원인이 된다. 전형적인 중이염에 의한 화골성 내이염의 경우 갑작스러운 난청과 어지럼증의 과거력이 있으나 특별한 증상 없이 우연히 발견되는 경우도 많다[7]. 세균성 뇌수막염에 의한 화골성 내이염은 뇌수막염이 발생한 후 3-4개월 이내에 생길 수 있으며[8], 중이염에 의한 경우는 화농성 내이염이 생긴 후 수 년이 지나야 발생하는 것으로 알려져 있다[9]. 내이염이 발생하는 경로로 뇌수막염의 경우 와우도수관이나 내이도와 같은 지주막하 공간을 통해 감염이 전파되고, 중이염에서는 난원창이나 정원창을 통해서 내이로 전파된다[3,4]. 초기에는 국소적인 내이골화가 발생하지만, 환자의 면역력이 떨어져 있거나 내이 감염이 진행되는 경우에는 미만성으로 골화가 발생하게 되며, 결국 시간이 경과하면서 내이의 대부분에 골화가 발생하게 된다[3]. 대부분은 와우에 국한되어 병변이 발생하는데, 반고리관까지 진행하거나 반고리관에 단독으로 발생하는 경우는 드물며[9,10], 발생 정도에 따라 다양한 양상의 청각 기능과 전정 기능 소실이 발생된다[3].

난치성 BPPV는 적절한 이석정복술에도 반응이 없거나 1년 이상 증상이 지속하여 재발하는 경우를 말한다[1,2,11]. 원인으로 부정확한 진단이나 여러 반고리관을 침범하는 다발성 BPPV, 반고리관의 협착이나 폐쇄 등 구조적 이상, 이석이 팽대부릉정이나 막성 반고리관에 부착되어 움직이지 않는 경우 등 다양한 가능성이 추정되고 있다. 치료를 위해 세심한 진단과 감별진단을 위한 노력이 중요하며 다양한 방법의 이석정복술과 습관화 운동 및 적절한 약물 치료를 시도하게 되고 후팽대부신경 절단술이나 후반고리관 폐쇄술 등의 수술이 도움이 될 수 있다[2,11,12]. 이와 같은 수술적 방법은 어지럼증의 치료에 효과적이지만 수술 후 청력 감소의 위험성이 있는데, 후반고리관 폐쇄술에서의 수술 후 감각신경성난청의 발생은 다른 이과 수술보다 심하지 않은 것으로 알려져 있다[13,14]. 수술 시 청력 보존을 위해서는 막성구조물에 대해 지나친 조작을 하지 말아야 하고, 드릴 시 저속으로 시행하며 골성미로를 제거한 후에는 근처에서 흡인을 하지 않도록 주의해야 한다[14].

본 증례에서는 오랫동안 만성중이염에 의해 화농성 내이염이 유발되고 반복된 염증 반응 때문에 화골성 내이염이 발생한 것으로 생각된다. 수술 소견에서 난원창 소와 주변에 육아조직과 신생골이 관찰되었고 수술 전 시행한 측두골 computed tomography (CT) 검사에서 와우의 대부분과 전정, 반고리관에 골화가 있었는데 이는 내이 감염이 난원창을 통해서 발생했을 가능성을 보여 준다. 내이의 완전 골화가 발생한 경우에는 선천성 내이 기형과의 감별이 중요할 수 있는데, 화골성 내이염의 경우 CT 검사에서 와우와 전정, 반고리관의 윤곽은 유지되면서 막성미로의 형태가 관찰되지 않는 것으로 구분할 수 있다. 본 증례에서 BPPV에 대한 치료에 반응이 없었던 정확한 이유는 알 수 없겠으나 후반고리관의 막성미로에 섬유조직과 신생골이 생기면서 내림프 공간이 협착되어 극도로 좁아진 막성미로와 팽대부의 내림프공간에서 신생골 조각들이 팽대부릉정에 부착되거나 부유하면서 지속적인 BPPV 증상이 유발된 것으로 추정된다. 수술 시 골성미로 내부는 섬유조직과 일부 신생골이 채워져 있었는데, 신생골을 제거하면서 막성미로의 내부에 미세한 공간을 확인할 수 있었다. 부분 미로절제술에서 와우의 기능이 보존되는 경우가 있고[15], 환자에서는 대부분의 미로에 골화가 진행되었기 때문에 후반고리관을 확실하게 폐쇄하기 위해 팽대부까지 드릴을 진행해서 팽대부 위치의 공간을 폐쇄했다. 수술 후 환자의 후반고리관 BPPV 증상이 사라졌는데, 결과적으로 화골성 내이염에 의한 섬유조직이나 신생골이 후반고리관의 팽대부릉정에 부착되어 지속적인 증상이 발생한 것으로 생각된다.

중심 단어: 내이염, 골화, 감각신경성난청, 양성돌발두위 현훈

CONFLICT OF INTEREST

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

REFERENCES

1. Horii A, Kitahara T, Osaki Y, Imai T, Fukuda K, Sakagami M, et al. Intractable benign paroxysmal positioning vertigo: long-term follow-up and inner ear abnormality detected by three-dimensional magnetic resonance imaging. *Otol Neurotol*

- 2010;31:250-5.
2. **Choi YG, Ko YJ, Kim HJ, Kim KS.** Updates in intractable benign paroxysmal positioning vertigo. *Res Vestib Sci* 2016;15:39-43.
3. **Suga F, Lindsay JR.** Labyrinthitis ossificans. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1977;86:17-29.
4. **Weissman JL, Kamerer DB.** Labyrinthitis ossificans. *Am J Otolaryngol* 1993;14:363-5.
5. **Suga F, Lindsay JR.** Labyrinthitis ossificans due to chronic otitis media. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1975;84:37-44.
6. **Axon PR, Temple RH, Saeed SR, Ramsden RT.** Cochlear ossification after meningitis. *Am J Otol* 1998;19:724-9.
7. **Hoffman RA, Brookler KH, Bergeron RT.** Radiologic diagnosis of labyrinthitis ossificans. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1979;88:253-7.
8. **Novak MA, Fifer RC, Barkmeier JC, Firszt JB.** Labyrinthine ossification after meningitis: its implications for cochlear implantation. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1990;103:351-6.
9. **Sugiura S, Paparella MM.** The pathology of labyrinthine ossification. *Laryngoscope* 1967;77:1974-89.
10. **Reeck JB, Lalwani AK.** Isolated vestibular ossification after meningitis associated with sensorineural hearing loss. *Otol Neurotol* 2003;24:576-81.
11. **Kim SH, Choi HS, Koo JW.** Surgical treatments of benign paroxysmal positional vertigo. *Res Vestib Sci* 2014;13:29-33.
12. **Leveque M, Labrousse M, Seidermann L, Chays A.** Surgical therapy in intractable benign paroxysmal positional vertigo. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2007;136:693-8.
13. **Beyea JA, Agrawal SK, Parnes LS.** Transmastoid semicircular canal occlusion: a safe and highly effective treatment for benign paroxysmal positional vertigo and superior canal dehiscence. *Laryngoscope* 2012;122:1862-6.
14. **Seo T, Hashimoto M, Saka N, Sakagami M.** Hearing and vestibular functions after plugging surgery for the posterior semicircular canal. *Acta Otolaryngol* 2009;129:1148-52.
15. **Ars B, Claes J, Casselman J, Ars-Piret N.** Preservation of cochlear function after extensive labyrinthine destruction. *Am J Otol* 1996;17:40-5.