

# Acquired Atresia of External Auditory Canal Associated With Synovial Chondromatosis of the Temporomandibular Joint

Soon-Joon Kim , Jae Hyun Kim , and Joong Keun Kwon 

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Ulsan University Hospital, University of Ulsan College of Medicine, Ulsan, Korea

## 턱관절의 활막 연골종증에 동반된 후천성 외이도 폐쇄증 1예

김순준 · 김재현 · 권중근

울산대학교 의과대학 울산대학교병원 이비인후-두경부외과학교실

**Received** November 9, 2021

**Revised** December 10, 2021

**Accepted** December 27, 2021

### Address for correspondence

Joong Keun Kwon, MD  
Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Ulsan University Hospital, University of Ulsan College of Medicine, 877 Bangeojinsunhwando-ro, Dong-gu, Ulsan 44033, Korea  
Tel +82-52-250-8807  
Fax +82-52-234-7182  
E-mail joongkeun@uuh.ulsan.kr

Synovial chondromatosis (SC) is a rare disease involving long bones, rarely affecting the temporomandibular joint (TMJ). It can manifest as preauricular swelling, pain, and joint dysfunction. This report represents the case of acquired atresia of external auditory canal in association with SC of TMJ. Active evaluation and treatment of TMJ pathology seem essential when addressing the acquired atresia of external auditory canal.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2022;65(6):362-5

**Keywords** Chondromatosis; Ear canal; Synovial; Temporomandibular joint.

## 서 론

활막 연골종증(synovial chondromatosis, SC)은 활액막의 비정상적인 증식으로 인해 발생하는 희귀 양성 질환으로, 석회화를 동반한 다발성 연골 유리체(loose cartilaginous bodies)를 특징으로 한다. 일반적으로 슬관절, 고관절, 견관절, 주관절 등 큰 윤활관절(synovial joint)에서 호발하며, 턱관절(temporomandibular joint)에서 발생하는 경우는 약 3% 정도로 드물다.<sup>1)</sup> 턱관절에 발생한 활막 연골종증이 외이도 침범을 보이는 것은 극히 드물며 후천성 외이도 폐쇄증을 유발한

경우는 아직 보고된 바가 없다. 저자들은 턱관절의 활막 연골종증에 동반된 후천성 외이도 폐쇄증에 대한 수술 경험을 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

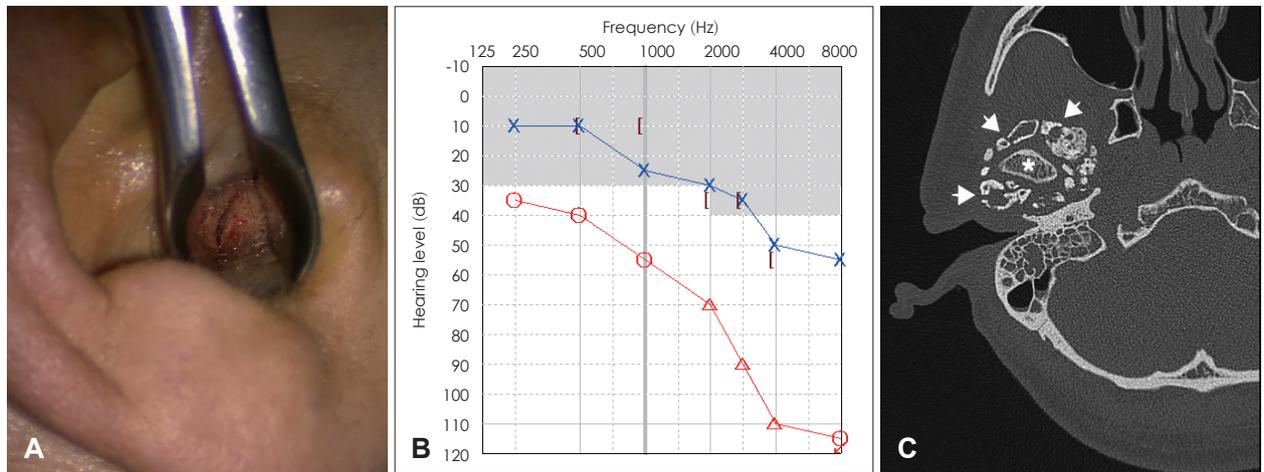
54세 남자로 7년 전 타병원에서 우측 외이도 협착증을 진단받았으며, 내원 1년 전부터는 반복적인 이루와 이충만감이 악화되어 내원하였다. 만성적인 심부정맥혈전증(deep vein thrombosis)으로 항응고제(rivaroxaban)를 복용 중이었으나 다른 과거력은 없었다. 이내시경 검사상 우측 외이도 협착 및 피부 부종으로 인해 고막은 관찰되지 않았다(Fig. 1A). 순음 및 어음청력검사서 우측 기도청력 64 dB, 골도청력 23 dB,

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.

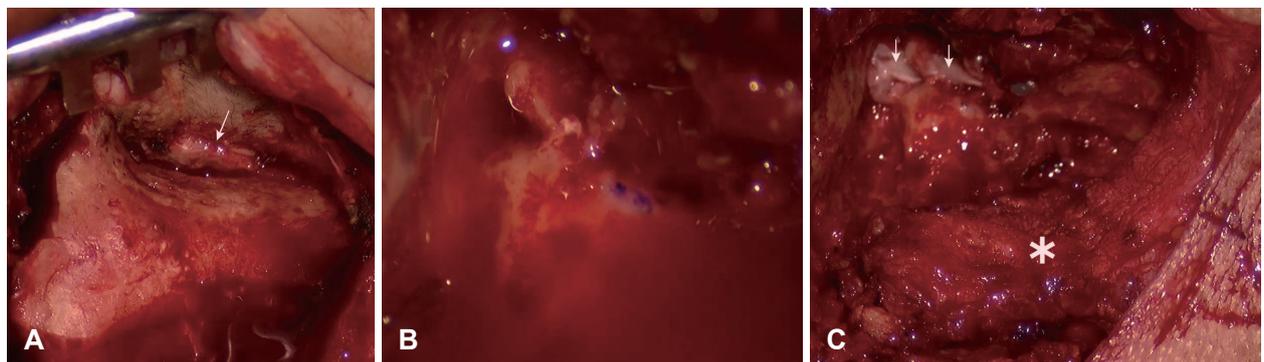
어음명료도 76%의 전음성 난청 소견을 보였으며, 좌측 기도 청력 25 dB, 어음명료도 88%로 측정되었다(Fig. 1B). 후천성 외이도 폐쇄증(acquired atresia of external auditory canal)으로 진단하였으며 재발 가능성 때문에 수술보다는 보존적인 치료를 권유하였으나, 타 병원에서 장기간 보존적 치료를 받아오던 환자는 적극적으로 수술적 치료를 원하였다. 고해상도 컴퓨터단층촬영(high resolution computed tomography, HRCT) 영상에서 우측 외이도와 고막의 비후 소견이 있었고 턱관절 내에 다발성 결절들의 골화 소견이 관찰되었다(Fig. 1C). 전신마취하에 후이개접근법을 통한 외이도 성형술을 시행하였으며 턱관절 내 결절들은 제거하지 않았다. 수술 소견상 외이도가 매우 좁았으며 고막 및 내측 외이도에 육아종성 염증과 섬유화가 두껍게 진행된 폐쇄판이 관찰되었다. 외이도 폐쇄판을 절제할 때 병변 부위 피부와 고막 상피층을 함께 제거하였고, 이후 외이도 전벽의 골결손과 턱관절 탈출(herniation) 소견을 관찰할 수 있었다. 재협착 방지를 위해 골외이도의 전, 후벽을 드릴로 갈아 전방 고막외이도각(an-

terior tympanomeatal angle)과 전방섬유륜(anterior fibrous annulus)이 충분히 노출되도록 확장하였다.<sup>2)</sup> 이개강(cavum concha) 연골을 제거하여 외이도길을 넓혔으며, 외이도 전벽의 골결손은 측두골 인상부(squamous part)에서 채취한 얇은 골판을 이용해 재건하였다. 피부가 제거된 외이도는 우측 상완부에서 채취한 0.5 mm 두께의 부분층 피부를 이식하여 재건하였다. 조직검사상 태선모양 염증을 동반한 궤양(ulceration with lichenoid inflammation) 소견이 확인되었다.

수술 4개월 후부터 씹을 때마다 느껴지는 이명과 두통 및 이충만감이 참기 힘들어졌으며 외이도 재협착이 진행되었다. 기관흡입관(suction tip, 8 Fr.)을 외이도에 삽입하여 보존적 확장술을 2개월 이상 시행하였으나 효과가 없어, 수술 8개월째 재수술을 계획하였다. 변형 Bondy 술식(modified Bondy technique) 및 외이도성형술을 시행하였고(Fig. 2) 턱관절 내 다발성 결절들은 치과 협진하에 전이개 접근법으로 제거하였다. 관절용기절제술(condylectomy)도 함께 계획하였으나 제거된 결절들의 총량이 많아 관절용기절제술은 시행하지 않았



**Fig. 1.** Preoperative findings. External auditory canal stenosis (A) and conductive hearing loss (B) of the right ear were found. Temporal bone CT image (C) demonstrated multiple calcified masses (arrows) encircling the condylar process (\*) of right temporomandibular joint.



**Fig. 2.** Intraoperative findings during modified Bondy technique. A: Re-stenosis of the external auditory canal could be seen after the elevation of the meatal flap (arrow). B: Ossicular chain was found intact after canal wall down mastoidectomy. C: A thin cartilage plate (arrows) was inserted under the incus body and another piece was placed between the incudal long process and the facial ridge to prevent retraction pockets. Mastoid cavity was obliterated using inferiorly based myoperiosteal flap (asterisk).

고, 턱관절 후벽에 다공성 폴리에틸렌(Medpor®; Stryker, Kalamazoo, MI, USA)을 삽입하여 탈출을 방지하고자 하였다. 턱관절 병변은 5-20 mm 직경의 7개의 표면이 매끄러운 결절들로 구성되어 있었으며(Fig. 3) 조직검사결과는 골연골 유리체(osteochondroid loose body)로 활막 연골종증에 합당한 소견을 보였다. 이차 수술 후 8개월간 외이도와 공동이 넓게 유지되고 있으며 순음 및 어음 청력검사에서 우측 기도청력 43 dB, 골도청력 33 dB, 어음명료도 80%로 전음성 난청이 많이 호전되었다(Fig. 4). 저작 시 외이도 전벽을 통해 턱관절 돌출이 관찰되나 돌출 시에도 고막이 60% 이상 관찰 가능한 상태이며 환자의 주관적 이충만감 또한 크게 호전된 상태다.

### 고 찰

후천성 외이도 폐쇄는 전음성 난청을 유발하는 흔치 않은 질환이다. Tos와 Balle<sup>3)</sup>는 이를 발병 선행인자별로 외상 후,



Fig. 3. A photograph of the specimen. A total of seven nodular masses were removed.

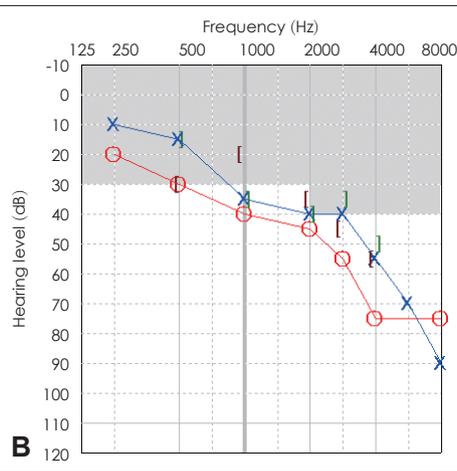
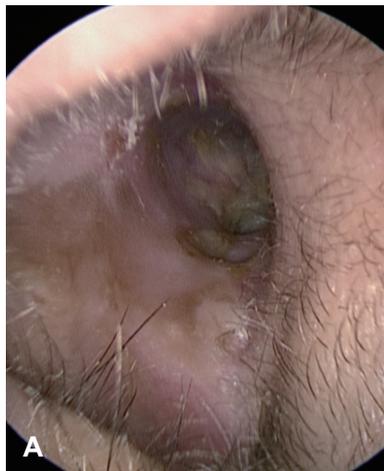


Fig. 4. Postoperative findings. A: The eardrum could be seen through the wide and patent cavity. B: Conductive component has decreased. C: Synovial chondromatosis was removed from the lateral and posterior temporomandibular joint, and porous polyethylene implant (Medpor®; empty arrow) was well maintained on the posterior surface of the joint.

수술 후, 종양성, 염증 후 발생하는 4가지 범주로 분류하였다. 염증 후 발생하는 경우 대개 수년에 걸쳐 진행하며 고막과 내측 외이도의 피부 상피층이 소실된 자리에 염증과 육아조직이 침착되고 섬유화 및 비후 과정을 거친다.<sup>4)</sup> 본 증례의 경우 외이도로 탈출한 턱관절 병변이 전방 고막외이도각을 좁히게 되었고, 탈락된 외이도 표피가 잘 배출되지 않으면서 반복적인 염증을 유발했을 것으로 추정된다. 국소적, 기계적 인자 외에도 자가면역질환인 편평태선(lichen planus)과의 연관 가능성도 제기된다.<sup>5)</sup> 편평태선은 털이 없는 피부와 점막에 생기는 질환으로 후천성 외이도 폐쇄증 역시 털 없는 내측 외이도와 고막 상피층에 생긴다는 공통점이 있다. 비록 본 환자에게서 편평태선의 현병력은 없었지만 조직검사에서 태선모양 염증 소견이 관찰되어 흥미로운 점이라 할 수 있다.

턱관절이 위치한 하악와(mandibular fossa)는 뒤쪽으로 외이도와 인접하기에 외이도에서 발생한 종괴나 감염이 턱관절을 침범할 수 있다. 반대의 경우는 드물지만 턱관절이 자발적으로 외이도로 탈출하기도 한다. 이는 5세가 지나서도 측두골 융합이 완성되지 않아 생긴 Huschke 공을 통해 외이도로 돌출하는 것으로 알려져 있다. 본 증례의 경우 잔존한 Huschke 공보다는 턱관절 병변의 만성적인 압박에 의한 이차적 외이도 전벽 결손으로 추정된다. 첫 번째 수술 후 외이도 협착이 재발한 것 또한 외이도성형술만 시행한 후 턱관절 병변은 제거하지 않았던 것이 원인이 되었을 것으로 생각된다.

활막 연골종증은 젊은 성인의 긴뼈(long bone) 관절에 주로 생기는 질환으로, 활액막 결합조직의 원발성 연골화생(chondrometaplasia)에 의해 발생한다.<sup>6)</sup> 발달된 연골결절이 떨어져 나와 관절강 내에서 석회화된 유리체로 존재하게 된다.<sup>7)</sup> 턱관절에서 발생할 경우 전이개 부종,<sup>1,7,8)</sup> 통증, 두통, 비빔소리(crepitation), 부정교합, 관절기능 장애 등의 증상 나타날 수

있다.<sup>7)</sup> 턱관절의 활막 연골종증이 전이개 부종 없이 단독적인 외이도 종물로 발현되는 경우는 매우 드물며,<sup>6)</sup> 후천성 외이도 폐쇄로 진행된 경우는 아직 보고되지 않았다.

돌이켜 볼 때, 턱관절 활막 연골종증만 제거했어도 외이도가 넓어질 수 있었겠지만 고막과 내측 외이도에 염증성 섬유화가 진행되었다는 점을 고려하면 폐쇄판 제거 및 충분한 외이도성형술이 반드시 필요한 술식이었을 것으로 생각된다. 이차 수술 시는 외이도 피부층에 염증성 재협착이 생기기라든가 외이도가 일정 수준 이상 유지될 수 있도록 개방동 유양돌기 절제술 및 외이도성형술을 시행하였다. 변형 Bondy 술식은 이소골 연쇄 및 고막긴장부가 온전할 때 사용할 수 있는 개방동 유양돌기절제술로 중이의 소리전달기전을 유지할 수 있는 장점이 있다.<sup>9)</sup> 본 증례의 경우 고막 천공이 없고 이소골 연쇄가 정상인 것을 확인하였기에 본 술식을 선택하였으며, 수술 후 난청이 호전된 것으로 보아 수술 전 전음성 난청은 외이도 협착에 의한 것으로 판단된다.

저자들은 매우 드물게 발생하는 턱관절 활막 연골종증이 후천성 외이도 폐쇄에 기여했을 것으로 추정되는 환자를 치험하였다. 단순한 턱관절 탈출을 넘어 내측 외이도 폐쇄를 유발할 수 있다는 점이 흥미롭고 이런 증례를 교훈 삼아 후천성 외이도 폐쇄의 경우 반드시 영상의학적 검사를 통해 턱관절 병변 유무를 확인하고 치료 계획에 반영하는 것이 중요하다고 판단된다.

### Acknowledgments

This research received no specific grant from any funding agency in the public, commercial, or not-for-profit sectors.

### Author Contribution

Conceptualization: Joong Keun Kwon. Visualization: Joong

Keun Kwon, Soon-Joon Kim. Writing—original draft: Soon-Joon Kim. Writing—review & editing: all authors.

### ORCIDs

Joong Keun Kwon <https://orcid.org/0000-0002-1180-9636>

Soon-Joon Kim <https://orcid.org/0000-0001-6537-1257>

Jae Hyun Kim <https://orcid.org/0000-0002-8274-6345>

### REFERENCES

- 1) Hohlweg-Majert B, Metzger MC, Böhm J, Muecke T, Schulze D. Advanced imaging findings and computer-assisted surgery of suspected synovial chondromatosis in the temporomandibular joint. *J Magn Reson Imaging* 2008;28(5):1251-7.
- 2) Lavy J, Fagan P. Chronic stenosing external otitis/postinflammatory acquired atresia: A review. *Clin Otolaryngol Allied Sci* 2000;25(6):435-9.
- 3) Tos M, Balle V. Postinflammatory acquired atresia of the external auditory canal: Late results of surgery. *Am J Otol* 1986;7(5):365-70.
- 4) Ghani A, Smith MC. Postinflammatory medial meatal fibrosis: Early and late surgical outcomes. *J Laryngol Otol* 2013;127(12):1160-8.
- 5) Hopsu E, Pitkäranta A. Idiopathic, inflammatory, medial meatal, fibrotising otitis presenting with lichen planus. *J Laryngol Otol* 2007;121(8):796-9.
- 6) Nussenbaum B, Roland PS, Gilcrease MZ, Odell DS. Extra-articular synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: Pitfalls in diagnosis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1999;125(12):1394-7.
- 7) Valentini V, Arangio P, Egidi S, Capriotti M, Vellone V, Castrechini M, et al. Diagnosis and treatment of synovial chondromatosis of the TMJ: A clinical case. *Ann Stomatol (Roma)* 2013;4(3-4):269-72.
- 8) McCaffery C, Dodd M, Bekiroglu F, Twohig E. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint with extension into the middle cranial fossa and internal carotid canal. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2017;46(7):867-70.
- 9) Shaan M, Landolfi M, Taibah A, Russo A, Szymanski M, Sanna M. Modified Bondy technique. *Am J Otol* 1995;16(5):695-7.