

외상목동맥해면굴색질의 색전술 후 지연 발생한 한 눈 가돌림신경마비와 호너증후군

Delayed Onset Abducens Nerve Palsy and Horner Syndrome after Treatment of a Traumatic Carotid-cavernous Fistula

김원제 · 문철원 · 김명미

Won Jae Kim, MD, Cheol Won Moon, MD, Myung Mi Kim, MD, PhD

영남대학교 의과대학 안과학교실

Department of Ophthalmology, Yeungnam University College of Medicine, Daegu, Korea

Purpose: We report a patient with delayed-onset abducens nerve palsy and Horner syndrome after endovascular treatment of traumatic carotid-cavernous fistula (CCF).

Case summary: A 68-year-old female visited our ophthalmic department complaining of gradual-onset ptosis of the left eye and horizontal diplopia. She had undergone endovascular treatment to treat left-sided traumatic CCF after a car accident 10 years before; she had been told at that time that the treatment outcome was favorable. The left-sided ptosis gradually developed 6 years after the procedure, accompanied by diplopia. The left eye exhibited miosis and the extent of anisocoria increased in dim light. An extraocular examination revealed 30 prism diopters of left esotropia in the primary gaze and a -4 abduction limitation of the left eye. CCF recurrence was suspected; however, magnetic resonance imaging with magnetic resonance angiography of brain did not support this. The esotropia did not improve during the 6-month follow-up and strabismus surgery was performed.

Conclusions: Delayed-onset abducens nerve palsy and Horner syndrome can develop even after successful endovascular treatment of CCF. Strabismus surgery should be considered in patients whose diplopia does not spontaneously improve.

J Korean Ophthalmol Soc 2019;60(9):905-908

Keywords: Abducens nerve diseases, Carotid-cavernous sinus fistula, Horner syndrome

목동맥해면굴색질(carotid-cavernous fistula)은 속목동맥(internal carotid artery)이 해면정맥굴(cavernous sinus) 안에서 파열되어, 높은 압력의 동맥피가 해면정맥굴 안으로 유입되어 발생한다.¹ 해면정맥굴 안의 압력 증가와 눈확 내부

의 혈액순환 저하로 복시, 결막출혈, 눈알돌출(exophthalmos), 시력 저하 등의 눈 증상이 발생할 수 있다.¹ 대부분의 경우 혈관 내 치료로 좋은 결과를 얻을 수 있다.^{2,3} 하지만 드물게 목동맥해면굴색질의 색전술 후 눈 증상이 호전되었다가 다시 뇌신경마비에 의한 복시가 발생할 수 있다.^{4,5} 저자들은 외상목동맥해면굴색질의 색전술 후 지연 발생한(delayed onset) 한 눈 가돌림신경마비(abducens nerve palsy)와 호너증후군(Horner syndrome)을 경험하였고, 가돌림신경마비에 대한 수술 치료를 시행하여 좋은 경과를 확인하였기에 이를 보고하고자 한다.

■ Received: 2019. 2. 12. ■ Revised: 2019. 3. 12.

■ Accepted: 2019. 8. 16.

■ Address reprint requests to **Myung Mi Kim, MD, PhD**
Department of Ophthalmology, Yeungnam University Hospital,
#170 Hyeonchung-ro, Nam-gu, Daegu 42415, Korea
Tel: 82-53-620-3441, Fax: 82-53-626-5936
E-mail: mmk@med.yu.ac.kr

* Conflicts of Interest: The authors have no conflicts to disclose.

© 2019 The Korean Ophthalmological Society

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

증례보고

68세 여자가 서서히 심해진 좌안 눈꺼풀처짐(ptosis)과 수평두눈복시로 왔다. 10년 전 교통사고로 좌측 외상목동맥해면굴셋길 발생하여 타 의료기관에서 색전술을 시행 받으며, 시술의 결과는 좋았다고 했다. 시술 6년 뒤부터 서서히 좌안 눈꺼풀처짐이 생겼다고 했으며, 이후 복시도 발생했다고 한다. 증상은 일중변화(diurnal variation)를 동반하지 않았다. 이전에 당뇨, 고혈압, 종양, 자가면역질환 등의 전신질환 또는 안과질환의 과거력은 없었다. 두통, 눈뒤통증, 귀울림(tinnitus)등의 다른 신경학적 증상을 동반하지 않았다. 교정 시력은 양안 20/20이었다. 얼굴이상 감각이나 통증은 없었다. 좌안의 눈꺼풀처짐과 함께 동공반응검사에서 좌안 동공이 우안보다 축소되어 있었는데, 어두운 조명

에서 동공부등은 더 심해졌다(Fig. 1). 위눈꺼풀테와 각막반사 사이의 거리(marginal reflex distance 1)는 우안 2.5 mm, 좌안 -1.0 mm였고 눈꺼풀올림근 기능은 양안 모두 정상이었다. 좌측 얼굴의 땀없음증(anhidrosis)은 없었다. 눈알돌출도 없었다. 안구운동검사에서 정면 주시 시 30프리즘디옵터(prism diopters)의 내사시와 좌안 -4의 가쪽운동장애 소견을 보였다(Fig. 2). 세극등현미경검사에서 특이 소견은 없었다. 안압은 양안 10 mmHg/AT였고, 안저검사에서 특이 소견이 없었다. 목동맥해면굴셋길의 재발 가능성을 고려하여 이전에 색전술을 시행한 타 의료기관의 신경외과에 의뢰를 하였고, 뇌 자기공명영상(magnetic resonance imaging)과 자기공명혈관조영술(magnetic resonance angiography)에서 재발을 의심할 소견은 없었다. 이후 6개월 동안의 경과 관찰에서 내사시의 변화는 없었고, 좌안의 안쪽곧은근

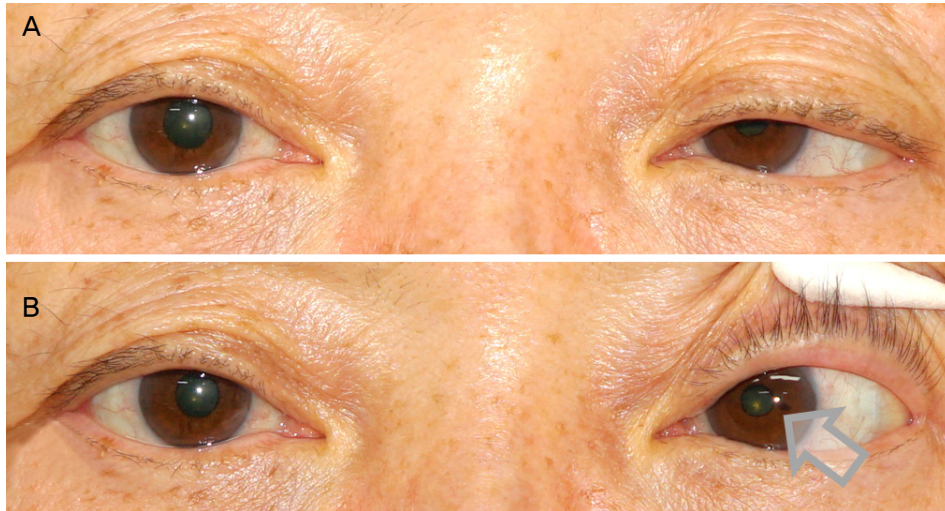


Figure 1. (A) and (B). Images of 68-year-old female who underwent endovascular treatment for left traumatic carotid-cavernous fistula 10 years ago. The patient demonstrated left-sided ptosis (A). The left eye showed miosis (B, arrow). The anisocoria increased in dim light, suggesting the left Horner syndrome.

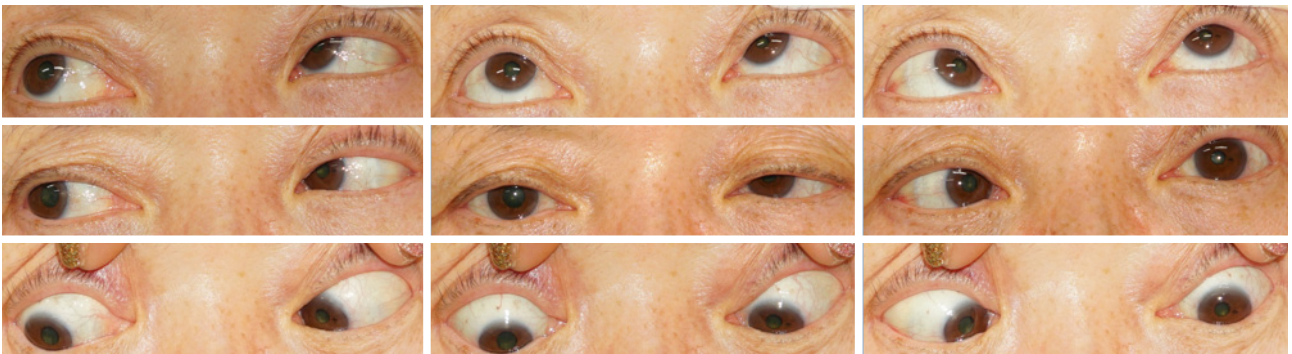


Figure 2. Images of the patient in nine diagnostic position of gaze. The patient showed 30 prism diopters left esotropia at primary gaze and -4 abduction limitation of the left eye with ptosis.

5 mm 후전술과 가쪽곧은근 5 mm 절제술을 시행하였다. 수술 3개월 후, 안구운동검사에서 정면 주시 시 정위였으며, 좌안 -1의 가쪽운동장애 소견을 보였다. 환자의 복시 증상도 호전되었다. 환자는 좌안 눈꺼풀처짐에 대한 추가 수술적 치료도 시행받았다.

고 찰

목동맥해면굴셋길의 혈관 내 치료술 후 지연 발생하는 뇌신경마비는 드물게 보고되었으며, 국내에서 수술 후 지연 발생한 가돌립신경마비와 호너증후군의 보고는 이전에 없었다.^{4,5} 가돌립신경은 뇌줄기(brain stem)에서 거미막밑 공간(subarachnoid space)으로 나와 해면정맥굴을 통과하여 눈축(orbit)으로 들어간다. 뇌줄기에서 눈축으로 이어지는 가돌립신경의 주행 경로 중 경색(infarction), 외상(truma), 출혈(hemorrhage), 압박(compression), 염증(inflammation) 등의 여러 원인에 의해 가돌립신경마비가 발생할 수 있다.^{1,6-8} 이와 동반된 다른 신경 증상을 확인하여 병변의 위치와 원인을 예측할 수 있다.¹

이 증례는 가돌립신경마비와 같은 쪽의 호너증후군을 보였으며, 이러한 경우 해면정맥굴의 병변을 예상할 수 있다.^{1,9} 해면정맥굴은 다양한 크기의 정맥이 분할과 융합된 열기(plexus) 공간 내에 속목동맥, 눈돌립신경(oculomotor nerve), 도르래신경(trochlear nerve), 가돌립신경, 교감신경(sympathetic carotid plexus), 삼차신경(trigeminal nerve) 등이 밀집하여 있는 해부학적 특징을 가지고 있다.^{1,10} 이러한 해면정맥굴의 구조적인 특징으로 인해 목동맥해면굴셋길의 대표적인 증상인 복시, 결막충혈 등이 발생하는 것이다.

가돌립신경은 해면정맥굴을 통과할 때 다른 뇌신경과 달리 속목동맥 가까이 위치하고 뇌막 가쪽에 부착되어 있지 않다. 이러한 이유로 가돌립신경은 목동맥해면굴셋길, 속목동맥바리, 속목동맥자루(aneurysm) 등의 속목동맥 혈관질환의 영향을 쉽게 받을 수 있다.^{1,10}

호너증후군은 교감신경계 병변에 의해 발생하며, 같은 쪽의 축동, 눈꺼풀처짐, 얼굴 땀없음증의 증상을 보인다.¹¹ 동공확장근의 교감신경 지배가 영향을 받아서 어두운 곳에서 동공이 정상 동공에 비해 느리게 확대되는 산동지체(dilation lag)가 발생한다. 점안 apraclonidine 또는 hydroxyamphetamine 검사가 호너증후군의 진단과 병변 확인에 도움을 줄 수 있지만, 대부분의 경우 동반된 증상의 확인을 통해 병변의 위치를 예상할 수 있다.¹¹ 조화운동불협증(ataxia), 눈떨림 등의 증상이 동반되면 중추호너증후군을 팔통증, 기침, 객혈, 목부종등의 동반 증상은 절전호너증후군의 가능성을 생각할 수 있으며 각각의 병변 확인을 위한 영상검

사를 시행할 수 있다.¹¹ 이 증례와 같이 가돌립신경마비를 동반하는 경우는 해면정맥굴 내의 해부학적 특징을 고려하여 절후호너증후군을 예측할 수 있는 것이다.

이 증례는 수술 6년 후부터 눈꺼풀처짐과 내사시에 의한 복시가 발생하였다. 이러한 색전술 후 가돌립신경마비의 발생 기전은 아직 명확하지 않다. 이전 연구들에서 색전술 시 삽입된 코일의 직접적인 뇌신경 압박, 수술 시 스텐트에 의한 뇌신경의 직접 손상, 영상검사에서는 확인이 어려운 경미한 목동맥해면굴셋길의 재발, 코일에서 혈전의 생성에 의한 허혈과 염증의 발생 등이 제시되고 있다.^{4,5,12} 하지만 이전 증례들에서 혈관 내 치료술 후 복시의 발생은 짧게는 6개월에서 5년까지 다양한 발생 시기를 보여 각각의 증례마다 다른 원인에 의해 뇌신경마비가 발생했을 가능성을 생각할 수 있을 것이다.^{4,5}

이전 증례들과 같이 본 증례에서도 내사시의 변화가 없어서 사시수술을 시행하였으며, 좋은 경과를 확인하였다. 목동맥해면굴셋길의 혈관 내 치료술 후 일시적인 복시의 발생과 자연 회복도 기대할 수 있으나, 지연 발생한 뇌신경마비가 경과 관찰에서 변화가 없다면 사시에 대한 적극적인 수술 치료를 고려할 수 있을 것이다.

결론적으로 외상목동맥해면굴셋길의 색전술 후 지연 발생한 가돌립신경마비와 호너증후군을 경험하였고, 가돌립신경마비에 대한 수술적 치료를 시행하여 좋은 경과를 확인하였다. 목동맥해면굴셋길의 혈관 내 치료 후 지연 발생하는 뇌신경마비는 드물지만 자연 회복을 보이지 않는다면 적극적인 사시수술을 고려할 수 있다.

REFERENCES

- 1) Miller NR, Subramanian PS, Patel VR. Walsh and Hoyt's clinical neuro-ophthalmology: the essentials, 3rd ed. Philadelphia: Wolters Kluwer, 2016; chap 18.
- 2) Chi CT, Nguyen D, Duc VT, et al. Direct traumatic carotid cavernous fistula: angiographic classification and treatment strategies. Study of 172 cases. Interv Neuroradiol 2014;20:461-75.
- 3) Gemmete JJ, Ansari SA, Gandhi DM. Endovascular techniques for treatment of carotid-cavernous fistula. J Neuroophthalmol 2009; 29:62-71.
- 4) Liu YL, Hsieh YH, Tsai TH. Late-onset abducens nerve palsy after endovascular treatment for carotid-cavernous fistula: two case reports. Neuroophthalmology 2014;38:131-4.
- 5) Ghannam AB, Subramanian PS. Delayed onset cranial nerve palsies after endovascular coil embolization of direct carotid-cavernous fistulas. J Neuroophthalmol 2018;38:156-9.
- 6) Kim I, Kim JH, Kim WJ. Abducens nerve palsy caused by the ophthalmic segment of an internal carotid artery aneurysm. J Korean Ophthalmol Soc 2018;59:388-92.
- 7) Seo Y, Kim K, Kim WJ. Abducens nerve palsy and optic perineur-

- itis caused by fungal sphenoidal sinusitis. J Korean Ophthalmol Soc 2018;59:797-801.
- 8) Kim WJ, Kim MM. Slit ventricle syndrome in pediatric patient presenting with only visual symptoms. Korean J Ophthalmol 2017; 31:92-3.
- 9) Kang NH, Lim KH, Sung SH. Horner's syndrome with abducens nerve palsy. Korean J Ophthalmol 2011;25:459-62.
- 10) Kline LB, Foroozan R. Neuro-ophthalmology review manual, 7th

- ed. Thorofare: SLACK, 2013; 83-122.
- 11) American Academy of Ophthalmology. 2018-2019 Basic and clinical science course, section 5. Neuro-ophthalmology. San Francisco: American Academy of Ophthalmology, 2018; chap 10.
- 12) Nishino K, Ito Y, Hasegawa H, et al. Cranial nerve palsy following transvenous embolization for a cavernous sinus dural arteriovenous fistula: association with the volume and location of detachable coils. J Neurosurg 2008;109:208-14.

= 국문초록 =

외상목동맥해면굴색질의 색전술 후 지연 발생한 한 눈 가돌림신경마비와 호너증후군

목적: 외상목동맥해면굴색질(tramatic carotid cavernous fistula)의 색전술 후 지연 발생한 가돌림신경마비(abducens nerve palsy)와 호너증후군(Horner syndrome)을 보고한다.

증례요약: 68세 여자가 서서히 심해진 좌안 눈꺼풀처짐과 수평두눈복시로 왔다. 10년 전 교통사고로 좌측 외상목동맥해면굴색질이 발생하여 색전술을 시행받았으며, 치료 결과는 좋았다고 했다. 시술 6년 뒤부터 서서히 좌안 눈꺼풀처짐이 생겼으며, 이후 복시도 발생했다고 한다. 좌안은 눈꺼풀처짐과 함께 동공이 축동되었으며, 어두운 조명에서 동공부등은 더 심해졌다. 안구운동검사에서 정면 주시 시 30프리즘디옵터의 내사시와 좌안 -4의 가쪽운동장애 소견을 보였다. 뇌 자기공명영상과 자기공명혈관조영술에서 목동맥해면굴색질의 재발을 의심할 소견은 없었다. 6개월 동안의 경과 관찰에서 내사시의 변화는 없었다. 사시수술을 시행하였고, 복시는 호전되었다.

결론: 목동맥해면굴색질의 색전술 후 한눈 가돌림신경마비와 호너증후군이 지연 발생할 수 있다. 지연 발생한 뇌신경마비가 자연 호전을 보이지 않으면, 적극적인 사시수술의 시행을 고려할 수 있다.

〈대한안과학회지 2019;60(9):905-908〉

김원제 / Won Jae Kim

영남대학교 의과대학 안과학교실
Department of Ophthalmology,
Yeungnam University College of Medicine

