

주기외사시 치험 1예

A Case of Cyclic Exotropia in a Pediatric Patient

최한늬 · 하석규 · 김승현

Hannui Choi, MD, Suk-Gyu Ha, MD, Seung Hyun Kim, MD, PhD

고려대학교 의과대학 안과학교실

Department of Ophthalmology, Korea University College of Medicine, Seoul, Korea

Purpose: To report a case of cyclic exotropia in a pediatric patient.

Case summary: There was a pediatric exotropia patient with large variation of prism diopter on alternate cover test at each visits. Not large enough for going through the surgery, she was recommended for the regular check-ups. Sometimes, she was orthophoria and some other times, distinct exotropia. After a few times of follow up, she showed 25-prism diopter exotropia on alternate cover test. The surgery was scheduled and she was admitted after 2 weeks. At the preoperative evaluation, she was orthophoria. She was discharged without having the surgery. To evaluate daily eyeball deviation status, the parents were asked to write a daily note on patient's eye condition. For 3-months, daily strabismus note was thoroughly reviewed and alternate cover test was performed monthly. Patch test was performed twice, and results were 10 and 12 prism diopter exotropia, each. Analyzing the note, a cycle of being the orthophoria and exotropia was noted. With the cycle of 72-hours, she was diagnosed with cyclic exotropia and the surgery was re-scheduled. Unilateral lateral rectus recession was performed. Without under-correction or recurrence, she has been stayed stable over two years of follow up period.

J Korean Ophthalmol Soc 2017;58(8):1012-1015

Keywords: Cyclic exotropia, Intermittent exotropia, Orthophoria, Strabismus note

주기외사시는 일정한 시간 간격으로 외사시를 보이는 질환으로, 그 주기는 48시간이 가장 많은 것으로 알려져 있다.^{1,2} 주기사시는 유병률이 낮고, 정위를 보이는 시기에 내원하게 되면 진단에 어려움이 있을 수 있다. 주기외사시에 대한 국내보고는 없다. 따라서 본 저자들은 소아 주기외사시 환아를 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례보고

30개월 된 여자아이가 간헐적 외편위를 보여 본원 사시 클리닉에 내원하였다. 내원하여 시행한 프리즘교대가림검사에서 환아는 10프리즘디옵터 간헐외사시가 관찰되었고, 1달 후 시행한 프리즘교대가림검사에서는 정위를 보였다. 이후, 3개월 간격으로 1년간 경과관찰 하였고, 환아는 정위에서 25프리즘디옵터 외편위의 사시각 변화를 보였다. 내원 시 정위를 보인 날에도, 보호자는 환아가 집에서는 눈이 바깥으로 돌아간다고 호소하였다. 2회 연속 외래 방문 시 사시각이 25프리즘디옵터로 측정되어 수술을 계획하였다 (Fig. 1).

입원 후 시행한 프리즘교대가림검사에서 정위를 보여 수술을 보류하였다(Fig. 2). 이후 보호자에게 사시일지를 작성하도록 하였고, 1달 간격으로 3번 내원하도록 하였으며, 내

- Received: 2016. 9. 13. ■ Revised: 2017. 1. 23.
- Accepted: 2017. 7. 14.
- Address reprint requests to **Seung Hyun Kim, MD, PhD**
Department of Ophthalmology, Korea University Anam Hospital, #73 Incheon-ro, Seongbuk-gu, Seoul 02841, Korea
Tel: 82-2-920-5520, Fax: 82-2-924-6820
E-mail: ansaneye@hanmail.net

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

© 2017 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.

원 시 사시각을 측정하고 사시일지를 분석하였다. 프리즘 교대가림검사결과는 각각 8프리즘디옵터, 18프리즘디옵터, 및 4프리즘디옵터 외편위가 관찰되었다. 환자의 사시각이 4프리즘디옵터 외편위로 측정된 날, 가림검사를 통하여 융합을 해리시킨 상태에서 사시각을 다시 측정하였고 12프리즘디옵터 외편위로 사시각이 증가하였다. 보호자가 지참한 사진을 바탕으로 각막반사를 이용한 최대사시각은 25프리즘디옵터였다. 또한, 사시일지 분석을 통하여 외편위를 보이는 날의 규칙성을 관찰할 수 있었다. 약 48시간의 외편위를 보였고 24시간 정도의 안정기를 보여, 72시간 주기의 주기외사시임을 확인할 수 있었다. 환아는 주기외사시 진단 하에 수술을 결정하였다. 보호자가 양안외직근후전술로 인한 과교정에 대하여 두려워하여, 저교정의 가능성은 있으



Figure 1. The patient with 25 prism diopter exotropia. This is when the surgery was first scheduled.

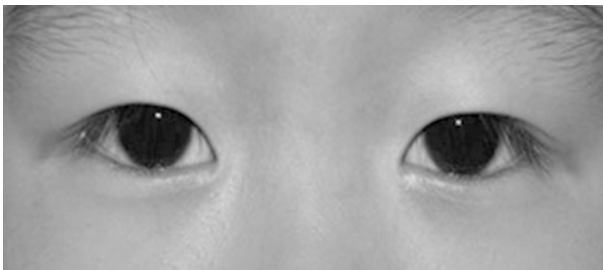


Figure 2. The orthophoric patient. This is when patient was admitted for the surgery. The surgery was hold since she was orthophoric in alternative cover test.



Figure 3. Orthophoric patient 1 week after the surgery. She was diagnosed with 72 hour cycle exotropia and unilateral lateral rectus recession was performed.

나 융합에는 지장이 없을 것을 설명한 후 좌안 외직근후전술 8 mm를 시행하였다. 술 후, 2년간 가림치료 및 재발 없이 안정적인 경과를 보였다(Fig. 3).

고 찰

주기사시는 일정한 시간 간격으로 사시를 나타내는 질환으로, 주기내사시, 주기해리수직편위 및 주기외사시가 대표적이다.^{1,3} 주기사시는 1958년에 Knapp and Allen⁴에 의해서 처음 소개되었다. 한때 주기사시는 다른 이름으로 불리기도 했는데, 1963년 Roper-Hall and Yapp⁵은 주기사시를 “alternate day squint”라고 부른 바 있고, 1968년 Richter⁶는 “clock mechanism esotropia”라는 이름으로 발표하였다. 주기는 대부분 24시간의 배수 단위로 올라가며, 48시간 주기가 가장 흔하고, 24시간, 72시간 및 96시간의 주기도 보고되었다.⁵⁻⁷ 원인이 정립되지 않았지만, 생체리듬 등이 영향을 미치는 것으로 추측된다.^{5,6,8}

주기외사시보다 주기내사시가 비교적 많은 것으로 보고되었고,^{2,3,7,9} 2009년 Dawson et al¹⁰이 발표한 24시간 주기의 소아 주기외사시에 대한 2예가 보고되었으며, Stager et al³이 5세 여아의 24시간 주기외사시에 대하여 보고한 바 있다. 또한 이 환자를 주기외사시로 진단하기 위하여, Stager는 보호자에게 사시노트를 기록하게 하였다.³

본 저자들이 보고한 환아는 수술이 필요하다고 판단되는 사시각을 보여 수술을 계획하였으나 술 전 평가에서 정위를 보여 수술을 보류하고 퇴원하였다. 퇴원 시, 가림치료를 하지 않도록 하였으며 보호자들에게 사시일지를 작성하도록 교육하였다. 위 환아를 주기외사시로 진단할 수 있었던 것은, 보호자에게 작성하도록 안내한 사시일지 기록으로 가능하였다. 첫째, 사시일지의 분석을 통하여 환아가 정위일 때와 외편위를 보이는 시기가 분명히 있음을 알 수 있었고, 둘째, 사시를 보이는 시기에 일정한 주기가 있음을 알 수 있었다(Fig. 4). 이는 환자가 내원 시 정위를 보일 수 있음을 설명할 수 있는 근거가 된다.

다만, 주기외사시는 드문 질환으로 진단 및 치료에 있어 확립된 기준이 없으며, Fig. 1에서 관찰되는 양안의 경미한 눈꺼풀 처짐이 눈근무력증을 감별질환으로 염두에 둘 필요가 있었다. Fig. 1에서 보이는 정도의 눈꺼풀 처짐은 환아가 졸려할 때 촬영한 사진으로 생각되어 anti-Ach R 등의 특수혈액검사를 시행하지는 않았다. 또한 눈근무력증은 특수 혈액검사보다는 임상증상으로 진단되는 질환으로, 환아의 경우 첫째, 문진상 피로도나 하루 일과 중에 영향을 받는 눈꺼풀처짐의 변동이 없었다는 점과, 둘째, 소아에서 눈근무력증의 유병률이 매우 낮다는 점 등을 근거로, 근무력

| 일 | 월 | 화 | 수 | 목 | 금 | 토 |
|--|---|---|--|--|---|---|
| | | | 3/5 가정생활기록부 작성(종인) 가정생활기록부작성 | 거의 안나타남 (안정착용) | X | 원 7:30 이후 가끔 10시 까지 두눈에 정도 안정착용 가감 |
| 24 전체적인 가정생활기록부 작성 | 25 원 8시~9시 안정착용 | 26 X | 27 X | 28 안정착용 | 29 안정착용 PM 4시 이후 안정착용 안정착용 안정착용 | 30 X |
| 31 AM 10시경(안정착용) PM 6시경(안정착용) | 4/1 AM 8:30~9시 PM 4:00~4시 안정착용 (안정착용) 안정착용 | 2 PM 4:00~4시 안정착용 (안정착용) 안정착용 | 3 AM 8:00~9:00 (안정착용) PM 9시~10시 (안정착용) | 4 AM 8:30~9:00 (안정착용) | 5 PM 5시 이후 (안정착용) 안정착용 | 6 안정착용 안정착용 (안정착용) (안정착용) |
| 7 안정착용 가정생활기록부 (안정착용) (안정착용) | 8 X 안정착용 | 9 AM 10시 이후 (안정착용) 안정착용 안정착용 | 10 AM 7:00시 이후 ~ 9:00 PM 4:00시 ~ 11:00시 까지 안정착용 (안정착용) | 11 X | 12 AM 8시 30분경 (안정착용) PM 4:00시 이후 (안정착용) | 13 거의 안나타남 |
| 14 X | 15 안정착용 가정생활기록부 (안정착용) (안정착용) | 16 AM 7:00시 ~ 9:00시 (안정착용, 안정착용) PM 7시 이후 ~ 10시 20분 가끔 (안정착용) | 17 X | 18 PM 5:00시 ~ 11:00시 안정착용 (안정착용, 안정착용) | 19 X | 20 안정착용 안정착용 (안정착용) (안정착용) |
| 21 안정착용 (안정착용) | 22 안정착용 가정생활기록부 (안정착용) | 16 * 햇빛에 노출되었을 때 22 * 눈부심을 느끼는 경향이 있습니다 | | | | |

Figure 4. Strabismus note. Daily note regarding the presence of eyeball deviation by the patient's mother.

중에 관련된 혈액검사를 시행하지 않았다.

주기외사시의 치료는 수술적 교정이다. Stager et al³은 최대 30프리즘디옵터 주기외사시를 보였던 환자에서 양안 외직근후전술을 시행하였다. Dawson et al¹⁰은 두 명의 주기외사시환자에서 수술적 치료를 하였고, 만족스러운 결과를 얻었다고 기술하였다. 위의 보고들과는 달리 본 저자들은 단안외직근후전술만을 시행하였다. 보호자가 과교정에 대하여 매우 두려워하였으며 저자들도 경험이 없었으므로, 저교정의 가능성을 충분히 설명한 후 단안외직근후전술만을 시행하였고, 만족스러운 결과를 얻을 수 있었다. 술 후 2년 후에도 재발 없이 안정적인 경과를 보였다.

결론적으로, 외사시각의 점차적인 진행을 보이지 않고 큰 변동을 보이면, 주기외사시의 감별진단을 염두에 두고, 주기외사시가 의심되는 환자에서는 보호자에게 사시일지를 작성하게 하여 검사 및 진단에 활용하는 것이 임상적으

로 유용할 것이라고 생각된다. 본 증례에서의 주기외사시는 술 전 관찰된 최대사시각을 기준으로 수술량을 결정하지 않고, 단안외직근후전술만을 시행하여도 술 후 안정적인 사시각을 유지하는 데 지장이 없었다.

REFERENCES

- Garg SJ, Archer SM. Consecutive cyclic exotropia after surgery for adult-onset cyclic esotropia. J AAPOS 2007;11:412-3.
- Hwang JM, Kim J. Cyclic exotropia associated with retinitis pigmentosa. Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol 2006;244:1549-51.
- Stager D Jr, Thyparampil PJ, Stager DR Sr. Cyclic exotropia in a child. J AAPOS 2010;14:553-4.
- Knapp P, Allen JH. Strabismus Ophthalmic Symposium II. St. Louis: Mosby, 1958: 488.
- Roper-Hall MJ, Yapp JMS. Alternate day squint. In: Kimpson H, ed. First International Congress of Orthoptics. St. Louis: CV

- Mosby Company, 1968; 262-71.
- 6) Richter CP. Clock-mechanism esotropia in children. Alternate-day squint. Johns Hopkins Med J 1968;122:218-23.
- 7) Murthy R, Hegde S. Acquired cyclic exotropia and hypotropia. J AAPOS 2009;13:312-4.
- 8) Windsor CE, Berg EF. Circadian heterotropia. Am J Ophthalmol 1969;67:565-71.
- 9) Roper-Hall G, Cruz OA, Espinoza GM, Chung SM. Cyclic (alternate day) vertical deviation--possible forme fruste of ocular neuromyotonia. J AAPOS 2013;17:248-52.
- 10) Dawson E, Adams G, Mengher L, Lee J. Alternate day exotropia. Strabismus 2009;17:171-4.

= 국문초록 =

주기외사시 치험 1예

목적: 주기외사시로 진단 받은 소아 환아를 치료한 경험을 보고하고자 한다.

증례요약: 30개월 여자 환아가 간헐적으로 눈이 밖으로 돌아나간다고 본원 사시클리닉에 내원하였다. 1년간 경과관찰 하였으며, 정위를 보일 때도 두 차례 있었고 25프리즘디옵터 외편위를 보이기도 하였다. 수술을 계획하였고, 입원하여 사시각 검사를 시행하였다. 환아는 다시 정위를 보였고, 보호자에게 사시노트를 작성해 오도록 한 후 입원을 취소하였다. 사시노트의 분석 및 교대가림검사의 결과를 토대로, 환아를 72시간 주기의 주기외사시로 진단할 수 있었다. 이에, 좌안외직근후전술 8 mm를 시행하였다. 술 후 2년간 경과관찰 중이며, 저교정이나 재발을 보이지 않고 안정적인 경과를 보였다.

〈대한안과학회지 2017;58(8):1012-1015〉
