

뇌척수액루가 동반된 전두사골 점액농류 조대술 후 발생한 긴장성 기뇌증 1례

양산부산대학교병원 이비인후과

김석현 · 정재훈 · 문수진 · 노환중

A Case of Frontoethmoidal Mucopyocele Combined with Cerebrospinal Fluid Leak and Complicated Tension Pneumocephalus after Marsupialization

Seok-Hyun Kim, MD, Jaehoon Jung, MD, Sue Jean Mun, MD and Hwan-Jung Roh, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head & Neck Surgery, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan, Korea

After the trauma of frontoethmoidal sinus, post-traumatic mucocoele may occur. Surgical removal of the lesions rarely produces cerebrospinal fluid (CSF) leakage and even delayed tension pneumocephalus. We experienced a case of fronto-ethmoid mucocoele complicated with peri-operative CSF leakage and post-operative tension pneumocephalus which was improved by conservative treatment. It is imperative to take into account the potential for tension pneumocephalus when a patient suffers from severe headache after sinus surgery.

KEY WORDS: Frontal sinus · Ethmoid sinus · Mucocoele · Cerebrospinal fluid leak · Pneumocephalus.

서론

비부비동의 점액낭종(mucocoele)은 상피층으로 둘러싸인 점액을 함유하는 낭을 말하며, 이는 이전 부비동 수술, 외상, 만성 부비동염, 종양, 감염이나 염증 반응에 의해 발생하며 이차적으로 부비동의 배액을 저해한다.¹⁾ 이러한 비부비동의 점액낭종에서 두통, 복시, 시력저하, 안검하수 등의 증상을 동반할 때, 수술적 치료, 즉, 조대술을 고려할 수 있다.

저자들은 34년 전의 외상 후 발생한, 뇌척수액 비루가 동반된 전두사골동(fronto-ethmoid sinus) 점액농류를 조대술한 이후 발생한 긴장성 기뇌증의 1례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

46세 남자가 두통을 주소로 외래에 내원하였다. 두통은 1년 전부터 발생하였으며, 후경부 방사통을 동반한 통증이었다. 신경학적 검사에서 감각저하나 운동장애 같은 특이소견은 없었으며, 비폐색, 비루 등의 비과적 증상 및 안과적 증상도 없었다 약물 치료에도 증상 호전이 없어 뇌 자기공명영상검사(brain magnetic resonance imaging, brain MRI)를 시행하였고 T1-강조영상에서 고신호강도, T2-강조영상에서 중간 신호강도를 보이는 우측 전두사골동에 위치한 낭종이 관찰되었다(Fig. 1A and B). 과거력 상 34년 전 추락사고로 인한 외상력이 있었으며, 이에 외상 후 발생한 전두사

논문접수일: 2016년 5월 17일 / 수정완료일: 2017년 8월 15일 / 심사완료일: 2018년 1월 9일

교신저자: 노환중, 50612 경남 양산시 물금읍 금오로 20 양산부산대학교병원 이비인후과

Tel: +82-55-360-2132, Fax: +82-55-360-2930, E-mail: rohjh@pusan.ac.kr

골동의 점액낭종으로 진단하였다. 부비동 전산화단층촬영 (paranasal sinus computed tomography, PNS CT)에서 brain MRI와 동일한 부위에 25×10 mm 크기의 연조직 음영이 관찰되었고, 이는 우측 안와지판(lamina papyracea, LP)을 미란시키며 우측 상사근을 압박하는 양상이었다. 아울러 우측 사상판(cribriform plate)의 외측기판(lateral lamella)의 골절 소견이 확인되었다 (Fig. 1C and D).

전신 마취 하 우측 점액낭종의 내시경적 조대술을 시행하

였다. 우측 안와지판에 유의하며 점액 낭종의 전벽을 열고 내부의 농성 분비물을 곡선형 흡인기를 이용하여 배액하였다. 세척 후 다시 점액낭종 내부를 30° 및 70° 내시경으로 관찰하는 과정에서 외측 기판(lateral lamella)에서 5 mm 정도 크기의 골부의 결손 및 박동성 뇌척수액루가 관찰되었다. 신경외과의와 협업 하에 사골 수직판 두 겹을 골부의 결손 부에 맞게 적절히 재단하여 두개저 재건 시행하였으며, 섬유소 응고제(tachoComb®, CSL Behring, Tokyo, Japan) 및 조

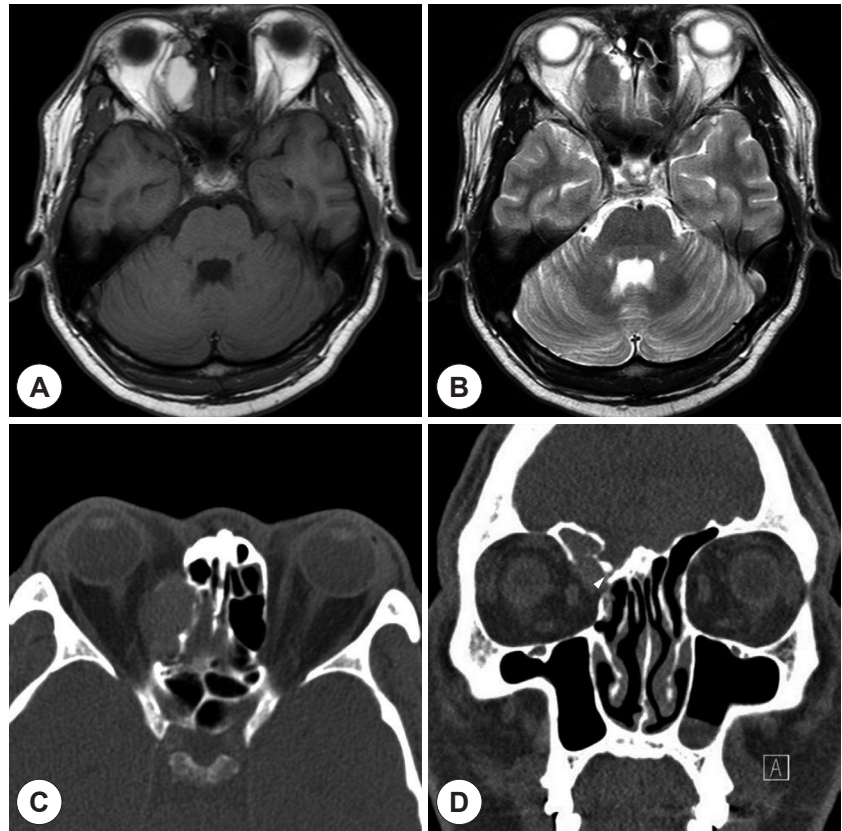


Fig. 1. Preoperative images. Brain MRI axial images show right frontoethmoidal homogenous lesion with high signal intensity (SI) on T1 weighted image (WI) (A) and intermediate SI on T2 WI (B). Non-enhanced paranasal sinus (PNS) CT shows of right frontoethmoidal sinus expansile lesion with erosion of lamina papyracea which is mildly compressing the superior oblique muscle on axial image (C) and broken lateral lamella (arrowhead) on coronal image (D).

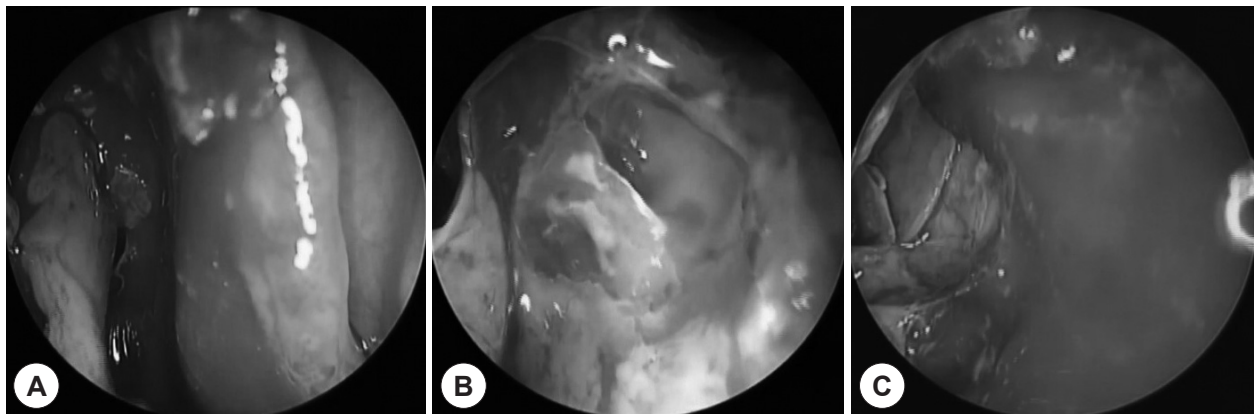


Fig. 2. Intraoperative endoscopic findings. The pus inside the mucocoele is removed (A). Cerebrospinal fluid (CSF) leakage is observed at lateral lamella (B). CSF leakage site is repaired with perpendicular plate of ethmoid bone (C).

직접착제(fibrin glue)를 사용하여 결손 부위를 추가 재건한 뒤 수술을 종료하였다(Fig. 2).

환자는 수술 후 3일 동안 요추 배액 후 침상 안정하였고, 혈액-뇌장벽(Blood-brain barrier)을 통과하는 항생제(ceftriaxone)를 예방적으로 사용하였다. 점액낭종에서 시행한 균 검정에서는 *Staphylococcus epidermidis*와 *enterobacter aerogenes*가 검출되었다. 특히 증상 없이 수술 후 7일째 퇴원하였다. 수술 후 10일째, 환자는 고개를 뒤로 젖힐 때 발생하는 VAS 10점의 두통 및 몇 초 이내의 불수의적 팔과 입의 경련을 주소로 응급실로 재내원하였다. 응급실 내원 당시 열이 동반되지는 않았으며 그 외의 신체 활력 징후도 안정적이었다. 비강 내를 확인했을 때 뇌척수액루는 확인되지 않았으며, PNS CT 및 brain MRI에서 긴장성 기뇌증이 진단되었다(Fig. 3). 신경과에서 시행한 뇌파 검사 상 정도의 미만성 대뇌 기능 저하가 확인되었으나, 간질성 뇌파는 확인되지 않았다. 뇌탈출 등의 위험성으로 요추천자는 시행하지 않았으며, 감염내과에서 권고한 예방적 정주 항생제(ceftriaxone, vancomycin) 및 신경과에서 권고한 경구 항경련제(S-levetiracetam) 사용, 침상 안정 및 수분섭취 제한 등의 비수술적 방법으로 보존적 치료를 시작하였다. 보존적 치료 후

시행한 5일째 시행한 brain CT에서 기뇌증이 호전되는 양상이 확인되었고 환자의 두통도 소실되었다(Fig. 4). 보존적 치료를 조금 더 유지하고 9일째 시행한 brain CT에서 기뇌증이 거의 소실됨을 확인하였으며, 이후 보행을 시작하면서 12일째 시행한 brain CT에서 추가적으로 기뇌증이 발생하지 않음을 확인하였다. 보존적 치료 2주째 발열 및 hsCRP가 7.78까지 상승되는 소견이 있어 뇌수막염을 염두에 두고 추가적 침상 안정 및 정주 항생제 사용을 포함한 보존적 치료 이후 수술 후 35일째, 응급실 내원 후 25일째 발열 및 염증 소견 확인되지 않아 퇴원하였다. 수술 후 6개월까지 외래 추적 시 특이 소견 없이 경과 관찰 중이다.

고 찰

전두동의 외상을 정복 수술 없이 방치할 경우, 만성 통증, 감각저하 및 미용상의 변형, 뇌척수액 비루 및 뇌막염, 뇌농양, 점액낭종 및 점액농류 등이 후기 합병증으로 발생할 수 있다.²⁾ 본 증례는 34년 전 사상판의 외측 기판 부위의 외상이 있었던 환자에서 발생한 두통으로 확인한 영상 검사에서 점액낭종(mucocele)을 의심하여 조대술을 시행하였으

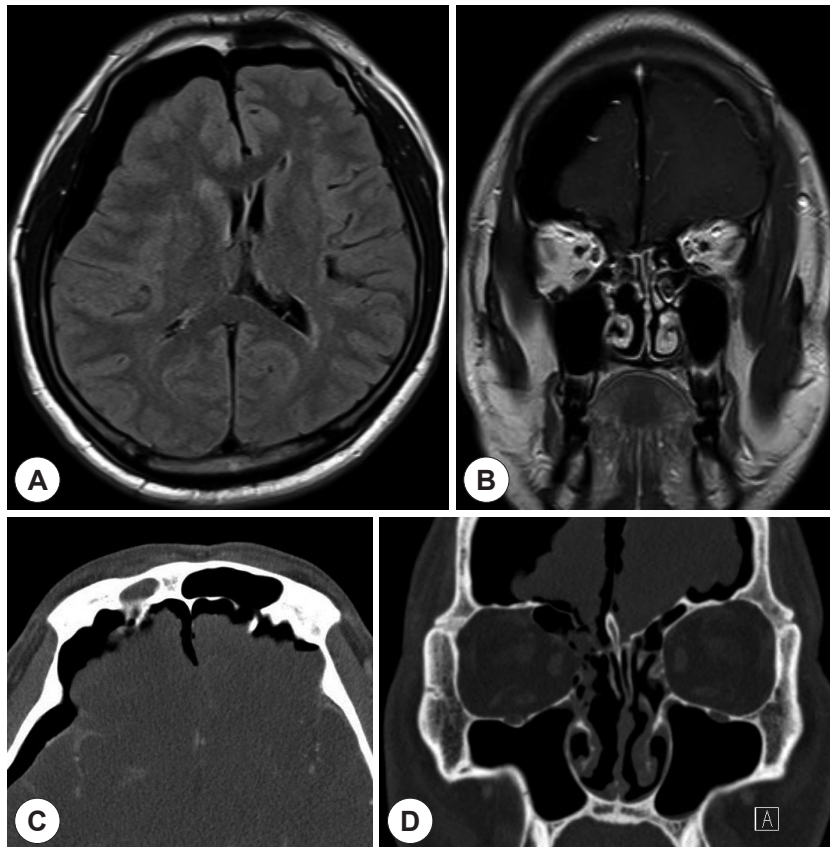


Fig. 3. The 10th postoperative images. Brain MRI T1 WI show pneumocephalus at frontal convexity compressing right frontal lobe, a left midline shift of brain and mild meningeal enhancement on axial (A) and coronal (B) image. Post-contrast PNS CT shows air collection at right frontotemporal region and a small bony defect at lateral lamella on axial (C) and coronal (D) image.

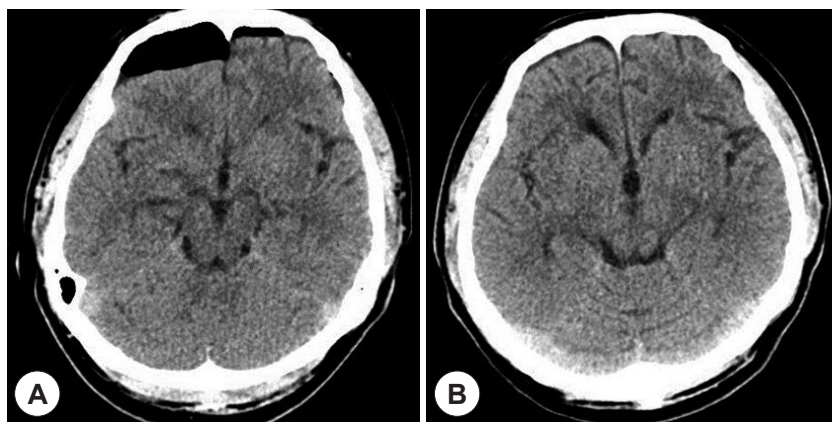


Fig. 4. The 15th and 23rd postoperative images. The 15th axial brain CT shows decreased air collection at frontal region and corrected midline shift (A). The 23rd axial brain CT shows no air collection at frontal region (B).

며, 이 과정에서 배농 후 사상판의 외측 기판 부위에서 뇌척수액루가 동반된 것을 확인할 수 있었다. 이러한 점액낭종 혹은 점액낭류와 동반된 뇌척수액루는 흔한 소견은 아니나, 그 기전으로 골부의 미란과 함께 점액낭종이 경막에 바로 맞닿아 있을 경우, 경막의 열상이 없더라도 점액낭종의 배농과 함께 자연스럽게 점막의 미세한 이동으로 인한 뇌척수액루의 발생이 가능할 것이라고 보고된 바 있다.³⁾ 본 증례에서도 뇌척수액루가 발생한 과정은 이와 유사한 기전에 의한 것으로 보이며, 사상판의 외측 기판의 골절이 동반된 점액낭종의 경우, 수술 중 기구 조작 시 더 주의를 기울일 필요가 있어 보인다.

기뇌증은 경막(dura)과 지주막(arachnoid)이 손상된 후 공기가 유입되어 두개강 내에 공기가 존재하는 상태를 말한다. 주로 뇌수술이나 사고에 의한 두개안면외상에 기인한 전두사골동 부위의 손상, 뇌막염 등에 의해 발생하는 경우가 많다.⁴⁻⁷⁾

기뇌증의 발병기전은 아직 명확히 밝혀져 있지 않지만 두 가지 가설이 있다.^{8,9)} 첫 번째 가설은 기침을 하거나 코를 풀 때와 같이 신체 내의 압력이 상승하는 상황에서 손상 받은 경막을 통해 공기가 두개강 내로 유입되어 발생한다는 구상밸브 기전(ball valve mechanism)이다. 두 번째 가설은 경막의 손상을 통해 뇌척수액 누출 후 두개강 내에 음압이 발생하면서 공기가 유입된다는 반전형 병 기전(inverted bottle mechanism)이다.

일반적인 두개저 재건 과정은 채취한 골부를 경막 외 공간에 내면이식법(underly fashion)으로 끼워 넣은 다음 점막 혹은 골점막을 이용한 피판이나 점막을 이용한 유리이식으로 누출 부위를 폐쇄하거나 재건한 후 조직접착제를 이용하여 이식편이 잘 접착되도록 돕는다.¹⁰⁾ 술자는 채취한 사골판 및 섬유소 응고제, 조직 접합제를 이용하여 두개저 재건을 시행하였으며, 수술상 내에서 뇌척수액루가 없는 것을 확

인하였지만, 결손부 주변 골부가 아주 얇아 사골판의 거치가 쉽지 않았고, 사상판(cribriform plate)의 외측기판(lateral lamella)이 측벽에 위치하여 70° 내시경을 사용하더라도 완벽하게 확인이 불가능한 사각 부위는 있다는 점, 그리고 점막 피판 혹은 점막 유리이식을 사용하지 않았다는 점에서 재건의 한계가 있었을 가능성이 크다. 따라서, 본 증례에서의 긴장성 기뇌증은 뇌척수액루에 의한 음압으로 재건 당시 남은 약간의 누출 부위를 통해 공기가 유입됨과 동시에, 환자 퇴원 후 보행 과정 중 신체 내 압력이 상승할 때에 누출 부위를 공기가 두개강 내로 유입되었을 가능성을 모두 의심해 볼 수 있다.

기뇌증은 부비동 내시경 수술 후 드물게 발생하는 합병증이지만, 특히 본 증례와 같은 긴장성 기뇌증의 경우 두개강 내로 지속적인 공기가 주입되어 비정상적 압력으로 뇌가 전위되어 신경학적 증상이 발생할 수 있어, 뇌탈출 등의 심각한 합병증으로 진행할 수도 있다. 그러므로 위험인자 평가, 방사선학적 검사, 이학적 검사는 긴장성 기뇌증의 빠른 진단 및 치료를 위해 필수적이다.^{11,12)}

기뇌증은 PNS CT나 brain MRI를 통해 진단할 수 있다. 특히 PNS CT의 경우 0.5 mL의 공기까지 관찰할 수 있고, 이는 뇌척수액보다 짙은색으로 -1000 housefield unit(HSU)의 상기 감쇠값(attenuation value)을 갖기에 진단에 유용하다.¹³⁾ 그러나 다수의 기뇌증의 환자들은 특별한 증상이 없는 경우도 많고, 경미한 두통만을 호소하는 경우가 있어 진단이 지연되는 경우가 많다. 본 증례의 경우에는 VAS 10점의 심한 두통을 동반하였고, 부비동 수술의 과거력이 있었기에 영상학적인 빠른 진단과 신속한 치료가 이루어졌지만, 그렇지 않을 경우 의식 소실 및 마비 등의 나쁜 예후와 더불어 사망까지 발생할 수도 있다.

기뇌증은 대부분의 경우에서 보존적인 치료로 자발적으로 흡수된다. 하지만 보존적인 치료에도 반응이 없으며 신

경학적으로 의미 있는 증상을 동반할 때에는 결손 부위를 복원하는 수술을 고려해야 한다. 신경학적으로 의미있는 증상을 동반하는 긴장성 기뇌증은 두개내 혈종과 같이 배기술(evacuation)이 필요한 신경외과적 응급으로 간주하여 두개 내 천두술(burr hole puncture)을 시행하기도 한다.¹⁴⁾ 증례수가 많지 않아 기뇌증의 치료에 대한 표준 치료법이 정립되어 있지는 않으나, 일반적으로 크기가 작은 경우, 우선적으로 보존적 치료를 시행하는데, 이는 혈괴 및 육아조직에 의해 일시적으로 폐쇄됨으로써 두개강 내 공기의 점진적인 흡수를 기대할 수 있기 때문이다. 보존적 치료 시에는 순차적으로 CT를 반복 확인하여 두개강 내 공기의 흡수 정도를 확인하여 호전이 없을 경우 수술적 치료 시기를 결정할 수 있다. 보존적 치료 이후에도 증상의 악화가 CT 상 확인되는 경우, 두개저 결손부에 의한 뇌막염의 위험이 높을 경우, 내시경으로 확인 시, 조직 재생이 잘 되지 않는 경우에는 응급수술을 고려해야 한다.¹⁵⁾ 본 증례의 경우, 뇌척수액루에 대해서는 수술장에서 즉시 재건한 상태였고, 비강 내 뇌척수액루가 확인되지 않아, 보존적 치료를 먼저 시도하였다. 만일 수술장 내에서 뇌척수액루에 대한 적절한 처치가 선행되지 않았었다면, 응급 수술로 뇌척수액루에 대한 재건을 먼저 시행하는 것이 올바른 치료 방법이었을 것이다.

외상으로 인한 두개골의 골절 후 발생한 점액낭종 및 점액농류의 경우 동반된 뇌척수액루에 대한 가능성을 고려해서 수술장 내 기구 조작 시 각별히 주의를 해야 할 것이다. 아울러 부비동 내시경 수술 후 발생한 심한 두통 및 경련의 경우, 반드시 기뇌증을 감별 진단 중 하나로 생각하여야 할 것이다. 본 증례와 같이 수술장 내에서 뇌척수액루를 재건한 경우라 하더라도 지연성으로 긴장성 기뇌증이 발생할 수 있으므로 임상적으로 긴장성 기뇌증 혹은 뇌막염이 의심이 된다면 즉시 영상학적 검사를 시행하여 적극적으로 진단하고 치료할 것을 권하는 바이다.

중심 단어 : 전두동 · 사골동 · 점액낭종 · 뇌척수액루 · 기뇌증.

Acknowledgments

본 연구는 2016년 양산부산대학교병원 임상연구비 지원으로 이루어 졌음.

REFERENCES

- 1) Pero CD, Nuss DW. Transnasal endoscopic removal of orbital, ethmoid sinus, and anterior skull base foreign body with mucocoele formation. *Skull Base* 2008;18:417-22.
- 2) Guy WM, Brissett AE. Contemporary management of traumatic fractures of the frontal sinus. *Otolaryngol Clin North Am* 2013;46(5):733-48.
- 3) Pizzo LJ, Mishler KE. Frontoethmoid mucocoele with CSF leak. *Ear Nose Throat J* 1984 ;63(11):571-3.
- 4) Chou S, Ning M, Buonanno F. Focal intraparenchymal tension pneumocephalus. *Neurology* 2006;67(8):1485.
- 5) Rao V, Fredrikli O, Gulati S. Post-traumatic epidural tension pneumocephalus: a case report. *J Med Case Rep* 2015;9:151.
- 6) Lee HC, Park IH, Choi CJ, Lee HM. A case of endonasal, endoscopic repair of posttraumatic delayed pneumocephalus. *J Rhinol* 2010;17(1):41-4.
- 7) Chi BJ, Bang SH, Chang WP. A case of traumatic subarachnoid pneumocephalus: as a complication of intranasal ethmoidectomy. *Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg* 1991;34(2):359-65.
- 8) Markham JW. The clinical features of pneumocephalus based upon a survey of 284 cases with report of 11 additional cases. *Acta Neurochir* 1967;16(1):1-78.
- 9) Naseem M, Hood J, Devasthali R. Traumatic pneumocephalus caused by a stab wound to the neck. *AJNR Am J Neuroradiol* 1986;7(1):174-5.
- 10) Singh R, Hazarika P, Nayak DR, Balakrishnan R, Hazarika M, Singh A. Endoscopic repair of cerebrospinal fluid rhinorrhea-Manipal experience. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2009;61(1):14-8.
- 11) Babl FE, Arnett AM, Barnett E, Brancato JC, Kharasch SJ, Janecka IP. Atraumatic pneumocephalus: A case report and review of the literature. *Pediatr Emerg Care* 1999;15(2):106-9.
- 12) Walker FO, Vern BA. The mechanism of pneumocephalus formation in patients with CSF fistulas. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1986;49:203-5.
- 13) Goldman LW. Principles of CT and CT technology. *J Nucl Med Technol* 2007;35(3):115-28.
- 14) Aksoy F, Dogan R, Ozturan O, Tugrul S, Yildirim YS. Tension pneumocephalus: an extremely small defect leading to an extremely serious problem. *Am J Otolaryngol* 2013;34(6):749-52.
- 15) DelGaudio JM, Ingley AP. Treatment of pneumocephalus after endoscopic sinus and microscopic skull base surgery. *Am J Otolaryngol* 2010;31(4):226-30.