코일 색전술 후 지속적으로 진행되는 외향신경마비

Continuously Progressive Abducens Palsy after Coil Embolization

이동훈¹ · 김미래² · 김명미³

Donghun Lee, MD, PhD¹, Mi Rae Kim, MD², Myung Mi Kim, MD, PhD³

대구가톨릭대학교 의과대학 안과학교실¹, 제일안과병원², 누네안과병원³

Department of Ophthalmology, Daegu Catholic University School of Medicine¹, Daegu, Korea

Cheil Eye Hospital², Daegu, Korea

Nune Eye Hospital³, Daegu, Korea

Purpose: To report a case of continuously progressive abducens palsy after transarterial coil embolization.

Case summary: A 42-year-old male was referred to the clinic due to binocular horizontal diplopia. The patient had a history of left direct carotid cavernous fistula (CCF) after head trauma, and his ocular symptoms developed 15 months after coil embolization for CCF. Visual acuity and pupil reaction of both eyes were normal. The ocular motility examination showed 14 prism diopters (PD) of left esotropia in the primary gaze with abduction limitation; therefore, the patient was diagnosed with left abducens palsy. There was no evidence of fistula recanalization or new abnormal lesions in follow-up brain imaging. After strabismus was stabilized with 35 PD of esotropia, strabismus surgery including left medial rectus muscle recession and lateral rectus resection was performed, and ocular alignment was normalized in the primary position. However, 2 years after surgery, left abducens palsy recurred and abduction limitation worsened to -4 over 10 months. Finally, the patient underwent superior rectus transposition and medial rectus re-recession, which improved his ocular alignment at primary position. Binocular diplopia was resolved at primary position.

Conclusions: Late-onset abducens palsy can occur after coil embolization and is likely to continue to progress. Because spontaneous regression is rare in late-onset palsy compared with acute-onset palsy, surgery should be considered when the strabismus becomes stabilized.

J Korean Ophthalmol Soc 2020;61(10):1240-1245

Keywords: Abducens palsy, Carotid cavernous fistula, Coil embolization

목동맥해면굴셋길(carotid cavernous fistula, CCF)은 목동맥(carotid artery)과 해면정맥굴(cavernous sinus) 사이에 비정상적인 셋길이 형성되어 동정맥의 교통이 일어나는 혈

관 질환으로서¹ 동맥류의 셋길로의 유입으로 인해 박동성 안구돌출, 안와 주위의 울혈, 눈운동마비와 복시 등의 안과적 증상과 징후가 나타나게 된다.² 신경학적 증상이 저명하고 누출의 양이 많은 경우 수술적 노출을 통한 직접적인 셋길의 제거 혹은 혈관을 통한 색전술을 시행하여 셋길을 폐쇄하는 치료가 필요한데 동맥을 통한 코일 색전술(transarterial coil embolization)은 수술에 비해 덜 침습적이면서 합병증이 적고, 셋길의 폐쇄 성공률이 비교적 높다는 장점으로 인해 비정상적인 동정맥단락의 치료에 최우선적으로 시행되는 시술(treatment of choice)이다.³

목동맥해면굴셋길과 같은 뇌혈관 질환이 있는 환자의 증

■ Received: 2020. 2. 13. ■ Revised: 2020. 4. 17.

■ Accepted: 2020. 9. 22.

■ Address reprint requests to Myung Mi Kim, MD, PhD
Nune Eye Hospital, #2179 Dalgubeol-daero, Jung-gu, Daegu
41940, Korea
Tel: 82-53-715-3300, Fax: 82-53-715-3443
E-mail: mmk@med.yu.ac.kr

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

© 2020 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.

상과 징후로 양안 복시 및 마비사시가 나타났을 때 코일 색전술을 시행 받은 후 안과적 증상이 호전되는 경우는 임상적으로 비교적 흔하게 관찰되지만,^{4,7} 반대로 코일 색전술 이후 이전에 없던 마비사시가 지연성으로 발생하는 경우는 드물다.^{3,8,9} 저자들은 외상으로 인한 목동맥해면정맥굴셋길로 진단받은 환자가 코일 색전술을 받은 지 15개월째 외향신경마비가 발생하였고, 수년에 걸쳐 지속적으로 진행하다가 두 번의 사시수술로 안정적인 안구 위치를 획득한 증례를 경험하였기에 고찰하고자 한다.

증례보고

두부 외상력이 있는 42세 남자 환자가 외상 1달 뒤 갑자기 발생한 좌안의 안구 압박감을 주소로 내원하였다. 갑상선 질환을 포함한 전신 질환 및 기존의 안과적 질환은 없었다. 내원 당시 최대교정시력은 우안 20/20, 좌안 20/20으로 시력저하는 없었고, 양안 복시도 호소하지 않았다. Hertel 안구돌출계 측정 결과 우안 17 mm, 좌안 21 mm (bar 111 mm)로 좌안의 안구돌출이 관찰되었다. 안구운동검사와 양안의 동공 반응도 정상이었다. 압평안압계로 측정한 안압은 우안이 12 mmHg, 좌안이 16 mmHg이었다. 안저검사에서 특이점은 없었고, 세극등현미경검사에서 좌안에 경도의 결막 부종 및 충혈이 관찰되었으며, 촉진에서 박동성 안구돌출과 청진에서 좌측 경동맥 주위 및 안와 상측의 잡음이 있어서 목동맥해면정맥굴셋길로 의심하였다. 그리고 뇌 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI) 및 자기공명혈관조영술(magnetic resonance angiography, MRA)에서 좌측의 확장된 위눈정맥이 관찰되어 외상에 의한 직접 목동맥해면정맥굴셋길로 진단하였다(Fig. 1A, B). 신경외과에서

경동맥 코일 색전술을 시행받은 후(Fig. 1C, D) 환자는 안과적 불편함이 해소되어 내원하지 않다가 시술 후 15개월째 다시 양안 복시를 호소하며 내원하였다. 복시의 일중 변동과 피로에 따른 눈꺼풀처짐은 없다고 하였다. 양안의 최대교정시력과 동공 반응은 정상이었었고, 안구운동검사에서 정면에서 좌안에 14 prism diopters (PD)의 내사시와 -1의 외전장애가 있어 좌안의 외향신경마비로 진단하였다. 좌안 내직근의 구축 및 외직근마비의 정도를 확인하기 위해 시행한 내직근견인검사에서 음성, 외직근의 근력검사에서 양성 소견을 보였다. 새로운 뇌병변 혹은 좌측 목동맥해면정맥굴셋길의 재발 여부를 확인하기 위해 뇌 MRI와 MRA를 시행하였고, 재발을 의심할 소견은 없었으며 갑상선눈병증에서 나타날 수 있는 외안근의 비대와 같은 변화도 없었다. 감염 혹은 자가면역 질환을 배제하기 위해 시행한 혈액검사에서도 특이 소견은 관찰되지 않았고, 항아세틸콜린 수용체 항체 역가 검사 및 갑상선 기능 검사에서도 정상 범위였다.

환자의 안구운동마비는 서서히 진행하여 색전술 후 20개월째 좌안에 35 PD의 내사시 및 -3의 외전장애가 관찰되었다(Fig. 2). 이후 6개월 동안 사시각의 변화가 없음을 확인한 후 좌안의 내직근 4 mm 후전술 및 외직근 5 mm 절제술을 시행하였다. 수술 후 환자는 정면에서 정위를 획득하였고, 외전장애도 -2로 호전되었는데 1년 간의 경과 관찰 기간 동안 안구 위치가 안정적이고 복시가 없어서 추적 소실되었다. 사시수술 이후 2년째 환자는 양안 복시가 재발하였다며 내원하였는데 안구운동검사에서 좌안에 6 PD의 내사시가 새롭게 관찰되고 -2의 외전장애가 있었다. 재발한 내사시와 외전장애가 진행되는 양상이었기에 추적 뇌 MRI 및 MRA를 촬영하였고 이전의 영상과 비교하여 뚜렷한 변

Figure 1. Brain images before transarterial coil embolization. (A) The brain magnetic resonance angiography demonstrated the fistula (arrow) from left internal carotid artery to cavernous sinus. (B) The axial view of the T2 weighted brain magnetic resonance imaging demonstrated engorged left superior orbital vein (SOV, arrow). (C) Pre-procedural angiography showed carotid cavernous fistula (thick arrow) and arterialized left SOV (thin arrow). (D) After transarterial coil embolization, coil was positioned properly in the fistula site (arrow) and arterial leakage to SOV was not observed.

Figure 2. Images of the patients in nine diagnostic position at 20 months after transarterial coil embolization. The patient showed 35 prism diopters of esotropia and abduction limitation of grade -3 in the left eye. At a shot of the primary position, he fixated the target with the left eye, and the esotropia was observed in his right eye.

화는 없었다(Fig. 3). 이후 10개월간 내사시는 점점 심해져서 최종적으로 좌안의 내사시는 45 PD로 증가하였고, 외전시 정중선을 넘지 못하였다(Fig. 4A). 두 번째 사시수술로써 좌안의 상직근 전위술 및 내직근 4 mm에서 7 mm로 재후전술을 시행하였고 수술 후 외전장애는 -3으로 개선되었으며 정면에서 정위를 획득하여 복시는 호전되었다(Fig. 4B). 이러한 안구 위치는 수술 후 3년째인 현재까지 안정적으로 유지되고 있다.

고 찰

코일 색전술 후 발생할 수 있는 안과적 합병증은 일시적인 결막출혈이나 안압상승부터 중심망막정맥폐쇄, 신생혈관녹내장, 마비사시와 같은 심각한 합병증까지 다양하게 보고되고 있다.⁹⁻¹¹ 코일 색전술과 관련된 뇌신경마비(cranial nerve palsy)는 비교적 흔한 합병증이지만^{12,13} 대부분의 연구는 신경과에서 보고하여 안과적인 임상 소견이 제한적으로 기술되어 있고, 특히 이전에 없던 마비사시가 시술 직후가 아닌 수개월 후 지연성으로 나타나는 경우는 매우 드물다.^{3,9,13,14}

마비사시의 발생률을 자세히 분석한 연구는 없으나 2008년에 Nishino et al⁹이 코일 색전술을 시행한 33증례 중 새롭게 마비사시가 발생한 경우가 5증례 있었는데, 그중 1증례는 동안신경마비, 3증례는 외향신경마비, 1증례는 동안신경과 외향신경의 다발성 마비였다고 보고하였다. 국내에서도 Kim et al⁸이 코일 색전술 후 발생한 호너증후군과 동반된 외향신경마비를 보고한 바 있지만 본 증례와 같이 증상이 서서히 악화되는 특성을 나타내지는 않았다.

코일 색전술 후 나타난 마비사시의 발생 기전은 아직 명확하지 않지만 제시된 기존의 가설은 크게 발생 시기에 따라 구분할 수 있다. Nishino et al⁹은 해면정맥굴경막동정맥

셋길 치료를 위한 색전술을 받은 직후부터 관찰된 마비사시를 분석하였을 때 그 기전이 코일의 직접적인 신경 압박(mechanically over-packing of coil)이 원인임을 언급하였다. 그리고 수일 혹은 수개월 후 발생한 마비사시는 해면굴 내의 혈전으로 인한 염증에 의한 신경의 기능부전(thrombosis and inflammation leading to cranial nerve dysfunction)⁹ 혹은 신경의 만성적인 허혈과 같은 원인¹³이 복합적으로 작용하여 지연성으로 마비사시가 발생하였을 가능성이 제시되었다.

본 증례는 목동맥해면정맥굴셋길을 진단하였을 당시에는 눈 주위 압박감과 같은 증상 및 결막출혈 징후만 있었고, 복시를 호소하거나 사시가 관찰되지 않았지만 코일 색전술을 받은 후 동측의 외향신경마비가 발생하였기에 코일 색전술과 관련된 마비사시일 가능성이 높다. 그리고 발생 시기가 시술 후 15개월 후 지연성으로 나타난 사시이기에 코일의 과도한 패킹과 같은 물리적인 원인보다는 코일 주위의 혈전 생성 및 염증에 의한 원인에 의해 나타났을 것으로 추측된다. 더불어 지연성으로 나타나는 마비사시는 동안신경마비에 비해 외향신경마비가 더 흔하게 보고되는데 이는 해면정맥굴 내에서 외향신경은 속목동맥의 가쪽 벽에 인접하여 주행하고, 경막의 보호를 받는 면적이 상대적으로 작기 때문에, 다른 신경에 비해 혈전과 그로 인한 염증 반응으로부터 손상 받기 쉬운 해부학적 특성으로 인한 것임을 언급한 기존의 가설^{9,15} 또한 이 환자에게서 나타난 지연성 외향신경마비와 관련이 있다고 생각한다.

기존에 보고된 코일 색전술과 관련된 외향신경마비와 비교하여 본 증례의 특이점은 첫 번째 사시수술 이후에 안정적이었던 안구 위치가 수술 후 2년째 정도의 내사시가 다시 나타났고 이후 뇌 MRI와 MRA에서 저명한 변화가 없음에도 불구하고 내사시와 외전장애는 10개월에 걸쳐 서서히 악화되었다는 것이다. 이러한 비전형적인 경과가 나타

Figure 3. Images of follow-up brain magnetic resonance imaging (MRI) and magnetic resonance angiography (MRA) at 4 years after transarterial coil embolization. (A) Well positioned coil material (arrow) was seen in the T2 weighted axial view. (B) In the coronal view of the T1 weighted brain MRI, coil (arrow) adjacent to the left internal carotid artery (ICA) and abducens nerve in the cavernous sinus was seen. (C) Recanalisation of the fistula or new shunt around left ICA (arrow) were not seen in the brain MRA.

Figure 4. Images of the patients in nine diagnostic position after strabismus surgery. (A) Although his stable ocular alignment has been maintained for a year after left medial rectus (MR) recession and lateral rectus resection, mild esotropia appeared at post-operative 2 year and deteriorated to 45 prism diopters with severe gaze limitation in abduction. (B) Finally, he underwent superior rectus transposition and MR re-recession which improved his ocular alignment at primary position.

난 이유를 고찰해보았을 때 먼저 Liu et al¹³이 언급한 것처럼 목동맥해면정맥굴셋길이 코일 색전술로 소실되었다가 뇌 영상검사로는 확인이 어려울 정도의 미세혈류(undetected subtle recanalisation)가 다시 발생했을 수 있다. 즉, 수년에 걸쳐 서서히 재발한 목동맥해면정맥굴셋길의 미세혈류 혹은 코일의 위치 틀어짐이 외향신경에 영향을 주어 내사시가 다시 나타났을 가능성을 생각할 수 있지만 추적 뇌 MRA에서 저명한 재발 소견은 관찰되지 않았고, 가장 정확한 진단을 할 수 있는 추적 뇌혈관조영술은 검사의 침습성

으로 인해 시행하지 않은 제한점이 있어 가설을 규명하는데 한계가 있다. 두 번째로, 내직근후전술 및 외직근절제술로 획득된 안구의 정위가 환자의 융합력으로 일정 기간 유지되다가 혈전으로 인한 일시적인 염증, 외향신경 주위의 만성적인 허혈 등의 다양한 요인이 작용하여 균형이 깨짐으로써 정도의 내사시가 다시 발생하였고 연쇄적으로 내직근의 구축과 같은 이차적인 원인으로 인해 외전장애가 점점 악화되었을 가능성이 있다. 그리고 두 번째 사시수술인 내직근후전술 및 상직근전위술을 통해서 구축된 내직근을

조금 더 약화시키고, 기능을 소실한 외직근의 외전 기능을 상직근이 대신하게 함으로써 장기간 재발 없이 안구 위치가 안정적으로 유지되었을 가능성을 생각해볼 수 있다.

기존에 보고된 코일 색전술로 인한 마비사시의 경과는 3개월에서 12개월 이내에 84.6%에서 자연적으로 해소되었다고 하였는데⁹ 그 이유는 혈전의 압박 혹은 염증에 의한 신경의 기능부전은 회복될 수 있고, 코일이 신경을 압박하고 있는 경우라도 측부 혈관망의 발달(collateral circulation development)로 신경의 허혈이 점차 해소될 수도 있기 때문이다. 하지만 지연성으로 발생한 마비사시는 대부분 호전이 없었고 이러한 경우 사시각이 안정화되었을 때 사시수술을 시행하여 만족하는 결과를 얻었다고 보고하였다.^{8,13} 본 증례 또한 두 번의 사시수술을 시행한 후 복시는 해소되었고, 안정적인 안구 위치는 장기간 유지되고 있다.

결론적으로 목동맥해면굴셋길의 코일 색전술 후 15개월 후 발생한 외향신경마비가 불완전마비로 처음 발현되더라도 지속적으로 외전장애가 악화되어 완전마비로 진행할 수 있음을 염두에 두고 장기적인 경과 관찰을 통한 면밀한 안구운동검사가 필요하다. 이 증례를 통해 임상가들이 코일 색전술 후 발생한 마비사시라는 드문 증례를 경험하였을 때 환자에게 질환의 경과 및 예후를 설명하고 치료 방침을 결정하는 데 도움이 될 것으로 생각한다.

REFERENCES

- 1) de Keizer R. Carotid-cavernous and orbital arteriovenous fistulas: ocular features, diagnostic and hemodynamic considerations in relation to visual impairment and morbidity. *Orbit* 2003;22:121-42.
- 2) Korean Neuro-ophthalmology Society. Chang Bong Leen Neuro-ophthalmology, 3rd ed. Seoul: Ilchokak, 2017;662.
- 3) Kashiwazaki D, Kuwayama N, Akioka N, Kuroda S. Delayed abducens nerve palsy after transvenous coil embolization for cavernous sinus dural arteriovenous fistulae. *Acta Neurochir (Wien)* 2014;156:97-101.
- 4) Gemmete JJ, Ansari SA, Gandhi DM. Endovascular techniques for treatment of carotid-cavernous fistula. *J Neuroophthalmol* 2009;29:62-71.
- 5) 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.
- 6) Kwon H, Lee KB, Park YJ, et al. A successful stent-assisted coil embolization in a patient with oculomotor palsy due to partially thrombosed-aneurysm in cavernous internal carotid artery. *J Korean Neurol Assoc* 2019;37:426-8.
- 7) Penchet G, Mourier K. Collaborative retrospective multicentre series of giant intracavernous carotid aneurysms. *Neurochirurgie* 2015;61:366-70.
- 8) Kim WJ, Moon CW, Kim MM. Delayed onset abducens nerve palsy and horner syndrome after treatment of a traumatic carotid-cavernous fistula. *J Korean Ophthalmol Soc* 2019;60:905-8.
- 9) 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.
- 10) Fukami T, Isozumi T, Shiino A, et al. Central retinal vein occlusion after embolization for spontaneous carotid cavernous sinus fistula. *No Shinkei Geka* 1996;24:749-53.
- 11) Miller NR. Severe vision loss and neovascular glaucoma complicating superior ophthalmic vein approach to carotid-cavernous sinus fistula. *Am J Ophthalmol* 1998;125:883-4.
- 12) Kim DJ, Kim DI, Suh SH, et al. Results of transvenous embolization of cavernous dural arteriovenous fistula: a single-center experience with emphasis on complications and management. *AJNR Am J Neuroradiol* 2006;27:2078-82.
- 13) Liu YL, Hsieh YH, Tsai TH. Late-onset abducens nerve palsy after endovascular treatment for carotid-cavernous fistula: two case reports. *Neuroophthalmol* 2014;38:131-4.
- 14) Ghannam AB, Subramanian PS. Delayed onset cranial nerve palsies after endovascular coil embolization of direct carotid-cavernous fistulas. *J Neuroophthalmol* 2018;38:156-9.
- 15) Ozveren MF, Uchida K, Tekdemir I, et al. Dural and arachnoid membraneous protection of the abducens nerve at the petroclival region. *Skull Base* 2002;12:181-8.

= 국문초록 =

코일 색전술 후 지속적으로 진행되는 외향신경마비

목적: 목동맥해면굴셋길의 치료로써 경동맥 코일 색전술을 시행 받은 환자에게서 지연성으로 발생한 외향신경마비가 지속적으로 악화된 증례를 보고하고자 한다.

증례요약: 좌측의 외상성 직접목동맥해면굴셋길로 진단받고 코일 색전술을 시행 받은 과거력이 있는 42세 남자가 15개월 후 양안의 수평복시를 주소로 내원하였다. 시력과 동공 반응은 정상이었고 안구운동검사에서 좌안의 14 prism diopters (PD)의 내사시와 외전장애가 나타나 좌측의 외향신경마비로 진단하였다. 추적 뇌영상검사에서 새로운 병변 혹은 재발을 의심할 소견은 없었고, 35 PD의 내사시로 사시각이 안정화된 이후 좌안의 내직근후전술 및 외직근절제술을 통해 정위를 획득하였다. 하지만 수술 이후 2년째 좌안의 외향신경마비는 재발하였고, 10개월에 걸쳐 외전장애는 -4로 악화되었다. 두 번째 사시수술로 내직근의 재후전술과 상직근의 근전위술을 시행하였고, 정면에서 복시는 호전되었다.

결론: 색전술 후 외향신경마비가 지연성으로 발생할 수 있고 지속적으로 진행할 수 있다. 지연성으로 발생한 경우 수술 직후 발생한 마비사시에 비해 자연 회복은 드물기에 장기적인 경과 관찰을 통해 사시각이 안정화되었다고 판단된다면 수술적 치료를 고려해야 한다.

〈대한안과학회지 2020;61(10):1240-1245〉

이동훈 / Donghun Lee

대구가톨릭대학교 의과대학 안과학교실
Department of Ophthalmology, Daegu
Catholic University School of Medicine