속목동맥 폐쇄의 치료를 위한 혈전제거술 후 발생한 안와경색증후군

Orbital Infarction Syndrome after Thrombectomy for Internal Carotid Artery Occlusion

이동훈¹ · 김원제² · 김명미³

Donghun Lee, MD, PhD¹, Won Jae Kim, MD², Myung Mi Kim, MD, PhD³

대구가톨릭대학교 의과대학 안과학교실¹, 영남대학교 의과대학 안과학교실², 누네안과병원³

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

Department of Ophthalmology, Yeungnam University College of Medicine², Daegu, Korea

Nune Eye Hospital³, Daegu, Korea

Purpose: To report a case of orbital infarction syndrome after thrombectomy for internal carotid artery (ICA) occlusion.

Case summary: A 69-year-old female with a history of diabetes mellitus and hypertension was referred to our clinic because of acute right ocular pain and visual disturbance. The patient had a history of a right middle cerebral artery territory infarction following right ICA occlusion and her ocular symptoms developed 6 hours after thrombectomy treatment. The visual acuity was hand motion in the right eye and 20/20 in the left eye. Pupil dilation and a relative afferent pupillary defect were seen in her right eye. There was ptosis of the right eyelid, and the ocular motility examination showed all gaze limitations in the right eye. In fundus examinations, multiple white focal ischemic retinal lesions were observed in the right eye suggesting branch retinal artery occlusion. Slit lamp examination showed chemosis in the right eye. The patient was diagnosed with ocular infarction syndrome due to micro-thromboembolism of the ophthalmic artery which developed after the thrombectomy.

Conclusions: Orbital infarction syndrome can occur after thrombectomy. Therefore, it is necessary to consider the development of orbital infarction when patients present with sudden-onset ocular pain, visual loss, and ocular movement limitations after the procedure.

J Korean Ophthalmol Soc 2020;61(9):1104-1108

Keywords: Ophthalmoplegia, Orbital infarction syndrome, Thrombectomy

눈동맥(ophthalmic artery)은 속목동맥(internal carotid artery)의 첫 번째 분지로써 눈알(eyeball)과 안와(non-ocular orbital structure)의 전반적인 혈액 공급을 담당한다. 따라서, 눈동맥 혹은 그 분지의 혈류장애가 발생하면 시력장애와 눈

운동마비를 포함한 다양한 눈 증상이 발생할 수 있다.^{1,2} 안구로 가는 혈류장애로 인해 전안부 및 후안부의 허혈성 변화가 나타나는 안허혈증후군³은 임상적으로 비교적 흔하게 관찰되지만 이와 더불어 눈꺼풀 처짐, 저안압, 전체눈근육마비(total ophthalmoplegia)와 같은 안와구조물의 허혈이 광범위하게 동반되는 안와경색증후군⁴은 드물다.⁵⁻¹² 안와경색증후군을 유발하는 다양한 원인들이 보고되었지만,⁵⁻¹² 속목동맥폐쇄의 치료로 혈전제거술을 시행한 후 안와경색증후군이 발생한 경우는 국내에서 보고된 바가 없기에 본 증례를 통해 고찰하는 바이다.

■ Received: 2019. 6. 13. ■ Revised: 2019. 8. 27.

■ Accepted: 2020. 8. 19.

■ 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.

증례보고

69세 여자 환자가 아침에 기상 후 갑자기 발생한 좌측 상하지의 힘 빠짐을 주된 소견으로 증상이 발생한 지 4시간 뒤에 본원 신경외과에 내원하였다. 과거력으로 당뇨, 고혈압을 3년 전에 진단받고 경구약을 복용하며 혈당과 혈압이 잘 조절되는 중이었으며, 이외의 질환 및 안과적 질환은 없었다. 이전 수술력 및 음주력은 없었으며 흡연력은 6갑년이 었다. 내원 당시 복시 및 시력저하는 없었고 동공 반응은 양안 모두 정상이었다. 원인 감별을 위해 시행한 뇌 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI)에서 우측 이마엽과 선조체낭의 다초점 급성 경색(multifocal acute infarction

in right frontal lobe and striatocapsular area)이 관찰되고, 자기공명혈관조영술(magnetic resonance angiography)에서 우측 중간대뇌동맥(middle cerebral artery, MCA) 및 우측 원위부 속목동맥의 혈류장애가 보여서(Fig. 1), 우측 중대뇌동맥 경색(MCA territory infarction)과 우측 속목동맥의 폐쇄로 진단하고 경피적 혈전제거술 및 경동맥 내 스텐트삽입술을 시행하였다. 이후 상하지의 힘 빠짐은 호전을 보였지만 시술을 받은 지 6시간 후부터 갑작스러운 우안의 통증 및 시력저하가 발생하여 안과에 의뢰되었다. 최대교정시력은 우안 안전수동, 좌안 20/20이었고, 동공반응검사에서 우안의 동공 확장 및 상대구심동공운동장애가 관찰되었다. 우안의 눈꺼풀처짐이 있었고, 안구운동검사에서 우안의

Figure 1. (A-D) The axial view of diffusion weighted imaging of the brain magnetic resonance imaging demonstrated multifocal high signal lesions in right frontal lobe and striatocapsular region (arrow), suggesting the right middle cerebral artery (MCA) territory acute infarction (A). The magnetic resonance angiography showed the occlusion of right internal carotid artery (ICA), while blood flows of the right external carotid artery (arrow in B) and left ICA (arrow in C) were intact. Pre-procedural angiography showed filling defects in right distal ICA (arrowhead) and MCA, and blood flow of right ophthalmic artery was intact (arrow in D).

Figure 2. Images of the patients in nine diagnostic position at one day after thrombectomy. The patient showed ptosis of the right eyelid (top image), and all gaze limitation of the right eye, especially severe in adduction.

전 방향의 안구운동장애가 관찰되었다(Fig. 2). 세극등현미경검사서 우안의 결막부종이 있었다. 압평안압계로 측정 한 안압은 우안이 12 mmHg, 좌안이 15 mmHg이었다. 안저검사서 우안의 망막동맥폐쇄를 시사하는 국소적으로 창백한 허혈성 병변이 망막에 다발성으로 관찰되었다(Fig. 3). 따라서 안저 소견 및 안구통증, 눈근육마비, 눈꺼풀처짐 등의 안과적 증상과 검사 소견을 종합하여 안와경색증후군으로 진단할 수 있었다. 그리고 혈전제거술 전에 시행한 혈관 조영술에서는 눈동맥의 혈류가 원활하였지만(Fig. 1D), 수술 후 1일째 시행한 추적 혈관조영술에서 우측 속목동맥 및 중간대뇌동맥은 재개통되었으나 눈동맥의 혈류정체가 관찰되었다(Fig. 4). 혈전제거술 후 발생한 미세혈전으로 인한 눈동맥의 혈전색전증이 안와경색증후군의 원인임을 영상학적으로 확인할 수 있었다. 이후 환자는 혈전예방약과 항혈소판제제를 지속적으로 복용하며 경과를 관찰하였다. 3개월째 안구통증 외에는 뚜렷한 호전이 없었으며, 환자는 연고지 관계로 타 의료기관으로 전원되었다.

고 찰

안와경색증후군은 안허혈증후군에 비해 드물게 보고되는 질환인데 그 이유는 안와는 풍부한 문합(anastomosis) 혈관 구조를 가져서 다른 혈관에서 혈류공급이 가능하기 때문이다.⁶ 하지만 눈동맥의 폐쇄로 인해 그 분지가 담당하는 안와구조물의 혈류공급에도 장애가 발생하면 안허혈증후군에서 나타나는 시력저하를 포함한 눈속구조(intraocular structure)의 허혈과 더불어 안와구조물(intraorbital structure)의 광범위한 허혈이 나타날 수 있다. 눈동맥의 분지인

앞섬모체동맥(anterior ciliary artery)의 혈류장애로 인한 눈근육마비 및 안와위동맥(supraorbital artery)의 혈류장애로 인한 눈꺼풀처짐과 같은 증상이 급성으로 나타나는 것이 안와경색증후군의 특징이다.⁴

Borruat et al⁶은 1993년에 급성으로 시력저하, 안통, 전안근 마비, 전후안부의 허혈이 공통적으로 나타난 세 명의 환자를 보고하면서 이를 안와경색증후군으로 처음 명명하였는데, 이후 다양한 원인에 의한 안와경색증후군이 보고되었다. 보고된 원인은 크게 4가지로 분류할 수 있는데 첫

Figure 4. Post-procedural angiography showed reperfusion of right internal carotid artery (ICA) (arrowhead) and middle cerebral artery (thin arrow), but poor filling was observed in the right ophthalmic artery (thick arrow), suggesting the thromboembolism after thrombectomy for right ICA occlusion.

Figure 3. Fundus photographs at one day after thrombectomy (A, B). The right eye showed multiple focal white ischemic retina, and narrowed retinal arterioles that correspond to the area of ischemia (A). The left eye showed normal appearance of optic disc and retina (B).

번째로 온목동맥(common carotid artery)의 폐쇄⁵ 혹은 필터 주입 후 합병증으로 발생한 눈동맥의 폐쇄^{13,14}와 같은 급성관류장애(acute perfusion failure), 두 번째로 전신적인 혈관염이 눈동맥까지 진행된 혈관 기능의 장애(inflammation),⁶ 세 번째로 모균증(mucormycosis)의 안구 침범(infection),^{6,12} 네 번째로 수술, 외상과 같은 다양한 원인으로 한정된 공간 내의 안와구조물이 압박을 받은 경우(compression),⁸⁻¹⁰ 그리고 위의 원인이 복합된 경우가 있다.¹¹

본 증례에서 혈전제거술 전에 시행한 혈관조영술에서 우측 속목동맥의 폐쇄 부위가 눈동맥 분지 부위보다 원위부 이기에 눈동맥의 혈류는 원활하였다. 하지만, 시술 후 추적 혈관조영술에서 우측 속목동맥의 폐쇄는 해소되었으나 눈동맥의 혈류 지체가 관찰되었다. 이는 혈전제거술 후 혈관을 부유하던 미세혈전으로 인해 눈동맥 혈전색전증이 생겼고, 눈동맥의 저관류에 의해 안와경색이 발생하였음을 의미하고, 이와 같은 증례가 국내에 보고된 적은 없었다. 급성 허혈뇌졸중의 치료를 위한 혈전제거술 후 이전에 영향을 받지 않은 영역에 새롭게 발생한 색전(emboli to previously nonaffected territories, ENT)은 혈전제거술의 합병증 중 하나로써 5-9%의 빈도로 나타나고, 대부분이 앞대뇌동맥(anterior cerebral artery)과 중간대뇌동맥 영역에 발생한다.⁷ 본 증례는 이러한 혈전제거술 후 새로운 영역에 발생한 색전(ENT)이 눈동맥에 발생한 경우이다.

환자가 주 증상으로 호소했던 안통은 안구나 경막의 허혈이 원인으로, 눈과 눈 주위의 빠른 양상으로 나타나며 이때의 통증을 협안증(ocular angina)라고도 한다.¹⁵ 그리고 세극등현미경검사에서 나타난 결막부종은 전안부의 허혈을 의미하고 이는 앞섬모체동맥 혹은 눈물샘동맥(lacrimal artery)의 폐쇄 때문이다. 또한, 망막의 가늘어진 동맥 및 이에 상응하는 불투명한 망막은 후안부의 허혈 소견으로 망막동맥(retinal artery)의 폐쇄도 동반되었음을 알 수 있다. 더불어 기존에 발표된 증례에서 외안근으로 가는 혈관의 저관류로 인해 영상검사에서 외안근의 근육내 부종이 관찰되었다는 보고도 있었지만,¹⁶ 본 증례에서는 MRI에서 외안근의 비대 소견은 보이지 않았다.

눈동맥의 혈류장애가 있는 모든 환자에서 안와경색증후군이 발생하지는 않는데 그 이유는 끝동맥(end artery)인 중심망막동맥(central retinal artery)과 짧은뒤모양체동맥(short posterior ciliary artery)을 제외한 눈동맥의 분지는 바깥목동맥(external carotid artery) 사이의 수많은 문합을 가지고 있기 때문이다.¹⁷ 기존에 보고된 증례들에 비해 본 증례의 특징점은 증상이 발생한 지 1일째에 안저에서 망막동맥폐쇄가 있기는 하지만 중심망막동맥폐쇄보다 분지망막동맥폐쇄의 소견을 보이면서 안와구조물은 심한 허혈이 나타났

다는 것이다. 즉, 끝동맥인 중심망막동맥은 일부 혈류가 유지되면서 문합을 통해 혈액을 공급받을 수 있는 안와구조물의 혈류는 완전히 폐쇄되었다고 추정해 볼 수 있는데, 이 환자에서 이러한 형태의 안와경색이 나타난 이유를 유추해보면 다음과 같은 두 가지 가능성이 있다.

먼저, 해부학적으로 이 환자가 가진 눈동맥의 혈관 구조가 문합이 부족한 형태(anomalous ophthalmic artery with lacking anastomotic channel)일 수 있다. 시술 후 1일째의 혈관조영을 보면, 속목동맥 및 중간대뇌동맥에 조영 충만 이 있을 때까지도 눈동맥의 조영은 원활하지 않는 것으로 보아 눈동맥 혈류에 지체가 있지만 완전히 폐쇄되지는 않았다고 볼 수 있다. 중심망막동맥까지 혈류가 미약하게 전달되어 망막에 분지망막동맥폐쇄 징후가 나타났고, 문합이 부족한 환자의 눈동맥 특성으로 인해 다른 분지가 담당하는 안와구조물에 오히려 심한 허혈이 나타났다고 추측된다. 두 번째로 환자가 가진 전신 이환력도 경색에 영향을 줄 수 있다. 안와경색증후군의 위험인자는 안허혈증후군과 비슷한데, 안허혈증후군의 73%에서 고혈압, 56%에서 당뇨가 동반된다고 보고된 바 있다.³ 안와경색증후군은 안허혈증후군에 비해 드물게 나타나기에 위험인자를 자세히 분석한 연구는 없으나 기존의 증례 보고에서 안와경색증후군이 발생하기 전에 환자들이 당뇨, 고혈압과 같은 혈관 질환이 있었음을 언급하였다.^{6,12} 따라서 이 환자는 고혈압과 당뇨, 그리고 흡연력이 전신적인 혈관 질환의 위험인자로 작용하여 눈동맥의 문합이 있어도 혈관 기능 저하로 인해 적절한 기능을 못하였을 가능성이 있다.

안와경색증후군의 치료는 원인에 따라 다양한데 혈전에 의한 경우에는 항응고제의 복용, 염증에 의한 경우 전신적인 스테로이드, 안구 및 안와의 산소 공급을 위해 고압산소 치료 등을 시도하지만 예후는 좋지 않다.¹¹ Borruat et al⁶은 안와경색증후군의 징후 중 시력저하와 망막 및 시신경의 손상은 영구적이지만 눈근육마비와 전안부의 허혈성 변화는 회복될 수도 있다고 설명하였고 그 이유는 시간이 지날수록 측부 동맥 혈관망(collateral arterial network)이 발달하기 때문이라고 하였다. Bogousslavsky et al⁵의 증례에서도 증상이 발생한 지 1일째에 안통과 눈꺼풀처짐의 호전, 11개월째에 안구운동장애의 회복이 있었다. 본 증례는 3개월간의 경과 관찰에서 안통과 결막부종은 호전되었지만 이외의 징후는 변화가 없는 상태였는데, 향후 호전 여부에 대한 장기적 관찰이 필요할 것으로 생각된다.

결론적으로 혈전제거술 후 안와경색증후군이 발생할 수 있다. 따라서 시술 후 환자가 갑작스러운 안통, 시력저하 및 눈근육마비를 호소한다면 안와경색증후군의 발생을 염두에 두어야 한다.

REFERENCES

- 1) Miller NR, Subramanian PS, Patel VR. Walsh and Hoyt's Clinical Neuro-ophthalmology the essentials, 3rd ed. Philadelphia: Wolters Kluwer, 2015;44-8.
- 2) Remington LA. Clinical anatomy and physiology of the visual system, 1st ed. Oxford:Elsevier, 2012; 202-17.
- 3) Sivalingam A, Brown GC, Magargal LE, Menduke H. The ocular ischemic syndrome. II. Mortality and systemic morbidity. Int Ophthalmol 1989;13:187-91.
- 4) Terelak-Borys B, Skonieczna K, Grabska-Liberek I. Ocular ischemic syndrome—a systematic review. Med Sci Monit 2012;18:RA138-44.
- 5) Bogousslavsky J, Pedrazzi PL, Borruat FX, Regli F. Isolated complete orbital infarction: a common carotid artery occlusion syndrome. Eur Neurol 1991;31:72-6.
- 6) Borruat FX, Bogousslavsky J, Uffer S, et al. Orbital infarction syndrome. Ophthalmology 1993;100:562-8.
- 7) Brinjikji W, Nicholson PJ, Hilditch CA, et al. Orbital infarction syndrome following mechanical thrombectomy secondary to embolization in new territory. World Neurosurg 2018;117:326-9.
- 8) Chung J, Cho YK, Lee YC. A case of orbital infarction syndrome after surgery for intracranial aneurysm. J Korean Ophthalmol Soc 1999;40:1684-8.
- 9) Lee EC, Kim TH, Jung JM, Seo SW. A case of orbital infarction syndrome caused by compression of bulky bicoronal scalp flap. J Korean Ophthalmol Soc 2002;43:795-800.
- 10) Maier P, Feltgen N, Lagrèze WA. Bilateral orbital infarction syndrome after bifrontal craniotomy. Arch Ophthalmol 2007;125:422-3.
- 11) Sio WS, Lee SH, Liang IC. Orbital infarction syndrome after multiple percutaneous sclerotherapy sessions for facial low-flow vascular malformation: a case report and literature review. Indian J Ophthalmol 2016;64:595-7.
- 12) Yang SW, Jeon EJ, Kim JC, Kim KB. A case of orbital infarction syndrome in rhino-orbitocerebral mucormycosis. J Korean Ophthalmol Soc 1999;40:1116-21.
- 13) Kim SN, Byun DS, Park JH, et al. Panophthalmoplegia and vision loss after cosmetic nasal dorsum injection. J Clin Neurosci 2014;21:678-80.
- 14) Lee WS, Yoon WT, Choi YJ, Park SP. Multiple cerebral infarctions with neurological symptoms and ophthalmic artery occlusion after filler injection. J Korean Ophthalmol Soc 2015;56:285-90.
- 15) The Korean Retina Society. Retina, 4th ed. Seoul: JIN & JPNC, 2015;308.
- 16) Noh CH, Lee HJ, Yi JS, et al. Five cases of orbital infarction syndrome caused by compression of surgical scalp flap. Korean J Cerebrovascular Surgery 2003;5:53-7.
- 17) Hayreh SS. The ophthalmic artery: III. Branches. Br J Ophthalmol 1962;46:212-47.

= 국문초록 =

속목동맥 폐쇄의 치료를 위한 혈전제거술 후 발생한 안와경색증후군

목적: 속목동맥 폐쇄의 치료를 위한 혈전제거술 후 발생한 안와경색증후군을 경험하였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 당뇨, 고혈압의 병력이 있던 69세 여자 환자가 신경외과에서 우측 중대뇌동맥 경색 및 우측 속목동맥의 폐쇄로 혈전제거술을 받은 후 6시간 뒤부터 갑자기 발생한 우측 안구통증 및 시력저하를 주소로 안과에 의뢰되었다. 최대교정시력은 우안 안전수동, 좌안 20/200이었고, 동공반응검사서 우안의 상대구심동공운동장애가 관찰되었다. 우안의 눈꺼풀처짐과 우안의 전 방향의 안구운동장애가 관찰되었다. 세극등현미경검사서 우안의 결막부종이 관찰되었으며, 안저검사서 우안의 망막에 허혈로 인한 다발성의 국소 창백 병변이 관찰되어 망막동맥폐쇄가 발생하였음을 알 수 있었다. 혈관조영에서 안동맥의 혈류 지체 소견이 관찰되었다. 급성으로 나타난 상기 안과 증상 및 검사 소견을 종합하여 속목동맥의 혈전제거술 후 발생한 안동맥의 미세혈전색전증으로 인한 안와경색증후군으로 진단하였다.

결론: 안와경색증후군은 혈전제거술의 합병증으로써 발생할 수 있다. 따라서 시술 후 환자가 갑작스러운 안통, 시력저하 및 안구운동장애를 호소한다면 안와경색증후군의 발생을 염두에 둘 필요가 있다.

〈대한안과학회지 2020;61(9):1104-1108〉

이동훈 / Donghun Lee

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