후두엽 신경낭미충증에 의한 동측반맹

Neurocysticercosis Presenting as Homonymous Hemianopia

이혜진

Hye Jin Lee, MD

제주대학교 의학전문대학원 안과학교실

Department of Ophthalmology, Jeju National University School of Medicine, Jeju, Korea

Purpose: To report a case of occipital neurocysticercosis presenting as homonymous hemianopia.

Case summary: A 52-year-old male with a history of frequent raw pork ingestion for 20 years presented with headaches, blurred vision, and a tingling sensation in the right side that worsened during the past two weeks prior to his visit. Visual acuity was 20/20 in both eyes. Humphrey automatic perimetry showed right homonymous hemianopia. Other ophthalmic examination results were unremarkable. Brain magnetic resonance imaging showed a large cystic mass with ring enhancement in the left occipital lobe, and several small parenchymal cysts in the right hemisphere. A serologic test for neurocysticercosis with cerebrospinal fluid was positive. He was treated with albendazole and steroid for two weeks, but the visual symptoms persisted. Craniotomy and removal of the cystic lesion were performed, and the visual field improved.

Conclusions: Symptomatic neurocysticercosis is rare, but it can be presented as homonymous hemianopia. Occipital lobe neurocysticercosis should therefore be considered when examining any patient with a visual field defect and a history of raw pork ingestion.

J Korean Ophthalmol Soc 2020;61(9):1115-1120

Keywords: Cysticercosis, Homonymous hemianopia, Neurocysticercosis, Occipital lobe, Quadrantanopia

유구낭미충증(cysticercosis)은 최종숙주인 인간이 *Taenia solium* (*T. solium*)의 유충에 감염된 중간숙주인 돼지의 근육을 덜 익혀 섭취하여 발생한다. *T. solium*의 유충은 소장에서 번식하여 성충이 되며, 대부분 무증상이지만 피하조직이나 근육, 안구에 감염을 일으켜 결절이 만져지거나 육안으로 보이기도 한다.

신경낭미충증(neurocysticercosis)은 감염된 인간의 대변

과 함께 배출된 *T. solium*의 충란으로 오염된 식품을 인간이 섭취한 후, 장내에 유리된 충란이 소장벽을 뚫고 혈액으로 침입하여 중추신경계에 감염될 경우 발생하며, 중추신경계의 기생충 감염 중 가장 흔한 질환이다.¹ 증상은 발작, 두통, 국소 신경 장애, 뇌신경마비, 보행 장애 등으로 나타내지만,^{2,3} 시야 흐림을 호소하여 시행한 시야검사에서 동측반맹이 나타난 경우는 국내에서 아직까지 보고된 바 없었다. 저자는 후두엽 신경낭미충증에 의한 동측반맹을 보인 환자에서 낭종절제술을 시행하고 시야의 호전을 보인 증례를 보고하고자 한다.

증례보고

52세 남성이 2주 전부터 심해지는 두통과 시야 흐림, 우측 반신의 감각 이상으로 내원하였다. 이전에 알콜성 간질

■ Received: 2019. 12. 16. ■ Revised: 2019. 12. 19.
■ Accepted: 2020. 8. 19.

■ Address reprint requests to Hye Jin Lee, MD
Department of Ophthalmology, Jeju National University
Hospital, #15 Aran 13-gil, Jeju 63241, Korea
Tel: 82-64-717-1142, Fax: 82-64-717-1102
E-mail: ilovelhj@hanmail.net

* 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.

환 진단을 받았고, 제주에 거주하고 있으며 20여년 전부터 돼지 생고기를 섭취해 왔다고 하였다.

내원 시 양안 나안 시력은 각각 1.0이었고, 안압은 우안 11 mmHg, 좌안 14 mmHg로 정상이었다. 안외상이나 수 술력 등 다른 안과 질환은 없었다. 세극등현미경검사와 안 구운동검사, 동공반응검사, 색각검사, 안저검사에서는 정상이었다. 그러나 험프리자동시야검사(Humphrey Instruments, San Leandro, CA, USA)에서 우측 동측반맹 소견을 보였다(Fig. 1). 신경학적 검사에서 우측에 고유수용체와 진동, 온도, 통증에 대한 감각 저하를 보였다. 이에 뇌자기공명영상 검사(magnetic resonance imaging, MRI)를 시행하였고, 좌측 후두엽에 $5.0 \times 4.6 \times 3.7$ cm 크기의 경계가 분명하고, 고리조영증강(ring enhancement)을 보이는 낭종이 관찰되었다(Fig. 2A). T1, T2 강조 영상 모두에서 낭종벽에 조영증강을 보였다. 이 외 좌측 뇌실질에 작은 낭종 2개가 더 있었으며, 우측 뇌실질에도 고리조영증강을 보이는 작은 2개의 낭종과 주위에 뇌부종이 동반되어 있어 신경낭미충증으로 진단하였다(Fig. 2B, C). 뇌척수액검사를 시행하였으며, 뇌압은 정상이었고, Enzyme-linked immunosorbent assay (ELISA)를 이용한 유구낭미충 항체(cysticercosis IgG)가 양성이었으나, 혈청 항체검사에서는 음성이었다. 2주간 알벤 다졸 400 mg을 하루 2회 경구 투여하고, 첫 이틀간 메틸프레드니솔론 1 g을 정맥 투여한 후 텍사메타손 10 mg으로

바꾸어 2주간 정맥 투여하였다. 그러나 투약 후에도 시야호전이 없고, 두통이 심해져 개두술과 낭종절제술을 시행하였다. 조직병리검사에서 만성 염증세포를 동반한 콜라겐 섬유로 이루어진 낭종 외에 유충의 두절(scolex)은 관찰되지 않았다(Fig. 3). 수술 두 달 후 나안시력은 각각 1.0이고, 뇌MRI상 좌측 후두엽 낭종은 성공적으로 제거되었으며, 우측 후두엽 낭종과 주변부 뇌부종도 호전되었다. 시야검사에서 수술 전에 비해 상측 시야가 호전된 우측 동측사반맹 소견을 보였고(Fig. 4A), 빛간섭단층촬영(optical coherence tomography; Carl Zeiss Meditec Inc, Dublin, CA, USA)에서도 정상이었다(Fig. 4B). 환자의 두통은 소실되었고, 시야 흐림도 수술 전에 비해 주관적인 호전이 있었다.

고 찰

신경낭미충증은 1980년대까지 한국에서 흔한 질환이었으나, 항기생충제의 보급, 돼지 사육 방식의 변화, 하수도 시설의 발달, 개인 위생 향상 등의 요인으로 인간 대변에서 충란이 발견되는 경우가 1971년 1.9%에서 2012년 이후에는 0.1% 미만으로 크게 감소한 것으로 보고되었다.² Son et al²은 26년간 신경낭미충증으로 진단받은 81명의 한국인을 대상으로 한 단일기관 후향적 연구에서 주로 남자에서 (79.0%) 평균 54.5세에 발병하고, 수도권(59.3%)과 제주

Figure 1. Humphrey visual field shows right homonymous hemianopia at the initial presentation. Visual acuity was 20/20 in both eyes.

(9.9%)에서 호발한다고 하였다. Kong et al⁴은 정상인군에서 혈청 유구낭미충 항체 양성률이 전북(5.9%) 다음으로 제주(2.5%)에서 높았고, 간질발작 환자군에서는 제주(8.4%)에서 가장 높았다고 보고하였다. 제주에서의 발병률이 높은 것은 식습관 때문인데 *T. solium*에 감염된 58명의 제주도민의 72%가 돼지의 생고기와 익히지 않은 내장을 함께 먹고, 19%는 돼지 생고기를 섭취한 과거력이 있었다.⁵

신경낭미충증의 발생 장소는 뇌실질(49.9%), 뇌실질외(30.9%), 혼합형(19.8%)의 순이며, 증상은 뇌실질(parenchymal)

신경낭미충증은 발작, 두통, 국소 신경 이상, 보행 장애의 순으로 나타나고, 뇌실과 지주막하 등에 발생하는 뇌실질외(extraparenchymal) 신경낭미충증은 주로 두통, 그리고 혼합형(mixed)은 발작과 두통을 호소한다.² 유구낭미충에 의한 신경낭미충증은 잠복기가 다양하기 때문에 효과적인 치료를 위하여 환자의 병력청취 및 임상증상과 더불어 혈청학적, 영상학적 검사를 통한 정확한 진단이 중요하다.^{1,4,6}

혈청학적으로는 ELISA를 이용한 *T. solium*에 대한 항체 검사가 일반적인 검사이며, 최근 연구에 의하면 활성화된

Figure 2. Brain magnetic resonance imaging shows a large cystic mass in the left occipital lobe. A 5.0 × 4.6 × 3.7 cm sized cystic mass was observed in the left occipital lobe, a small cystic mass with ring enhancement and massive brain edema in the right occipital lobe in fluid attenuated T2-weighted axial view (A), multiple nodular stage neurocysticercosis with ring enhancement in gadolinium enhanced T1-weighted image of sagittal view (B), in T1-weighted image of coronal view (C).

Figure 3. Pathologic findings of cyst. (A) Photomicrograph shows the cystic wall consisted of collagenous fibrous tissue (hematoxylin and eosin staining, ×10). (B) In the collagenous wall, some chronic inflammatory cells are observed (hematoxylin and eosin staining, ×40).

Figure 4. Humphrey visual field test and optical coherence tomography findings. (A) Humphrey visual field revealed improvement of right homonymous hemianopia 2 months after surgery. (B) Optical coherence tomography shows normal peripapillary retinal nerve fiber layer and ganglion cell-inner plexiform layer thickness. RNFL = retinal nerve fiber layer; OD = oculus dexter; OS = oculus sinister; TEMP = temporal, SUP = superior; NAS = nasal; INF = inferior; GCL = ganglion cell layer.

신경낭미충증 환자에서 혈청과 뇌척수액에서 모두 항체 양성인 경우가 81.8%, 혈청 또는 뇌척수액에서만 양성인 경우는 각각 9.1%로 혈청학적 검사의 진단적 가치가 매우 크다.⁶

영상학적으로 컴퓨터단층촬영(computed tomography, CT)과 MRI의 효용성이 큰 데, CT는 뇌실질에 석회화된 낭종을 관찰하는 데 민감하고 MRI는 CT에서 관찰이 어려운 뇌실질내 작은 병변과 뇌실 또는 지주막하 병변을 찾는 데 더 우수하며, 낭종내 두절이 보이거나 석회화된 병변 주변 뇌부종을 관찰할 수 있어 좋은 진단 방법이 된다.¹

치료로는 활동기의 뇌실질 신경낭미충증은 우선 항기생충제인 알벤다졸(albendazole) 혹은 프라지판텔(praziquantel)의 투여를 하고, 발작에는 항경련제, 심한 염증에는 스테로이드 투여를 한다.^{1,7} 두 개 이상의 낭종이 있는 경우에는 알벤다졸과 프라지판텔의 복합 치료가 기생충을 사멸시켜 증상을 호전시키는 데 도움이 된다.⁷

그러나 뇌실질 낭종의 크기가 커서 종괴 효과에 의한 수두증이나 시야 이상, 국소 신경학적 이상이 약물 치료로 호전되지 않은 경우, 항경련제로 치료되지 않는 발작, 전이암과 원발신경교종, 뇌농양과 감별이 안 될 경우에는 개두술과 낭종절제술을 시행한다.⁸ 뇌실질의 낭종이 지주막하에 있어 수두증과 뇌압 상승을 일으킬 때에는 뇌실복강단락술(ventriculo-peritoneal shunt)만으로는 호전이 되지 않는 경우가 많아 개두술과 낭종절제술을 시행하여야 하고, 뇌실에 있어 폐쇄수두증을 일으키는 경우에도 뇌실복강단락술과 낭종절제술을 함께 시행한다.⁸

본 증례에서 제주에서 태어나 지금까지 제주에 거주하고 있는 52세의 남자 환자가 수십 년간 돼지고기를 익히지 않고 섭취하는 습관이 있고, 두통과 시야 장애, 국소 신경 장애를 호소하였다. 시야검사서 우측 동측반맹을 보여, 뇌자기공명영상검사(MRI)를 시행하였으며, 좌측 후두엽에 고리조영증강(ring enhancement)을 보이는 거대한 낭종과 뇌실질에 다른 작은 낭종들을 발견하였고, 뇌척수액에서도 *T. solium*에 대한 항체가 양성이어서 뇌실질 신경낭미충증으로 진단할 수 있었다. 알벤다졸과 스테로이드를 2주간 치료하였으나 시야의 호전이 없고 두통이 심해, 개두술과 낭종절제술을 시행하였다. 수술 2개월 후 시행한 험프리자동시야검사서 우측 동측하사분맹의 시야 결손이 남아 있었으나, 수술 전에 비해 호전되었고 빛간섭단층촬영에서 유두주위 망막신경섬유세포와 신경절세포-내망상층 두께가 정상이어서 시야장애는 추후 더 호전될 수 있을 것으로 보인다.

Sharma et al⁹는 후두엽에 발생한 신경낭미충증으로 환시

(visual hallucination)를 호소하는 4명의 인도인 중 한 명에서 실제로 시야검사서 결손을 보였다고 하였다.⁹ 이 환자의 뇌MRI에서 좌측 후두엽에 0.5 × 0.8 cm 크기의 작은 낭종과 주위 부종이 동반되어 있었고, 우측 동측 상측의 사분맹을 보였으며 6개월간 약물 치료 후 낭종이 완전히 없어지고 시야가 완전히 호전되었다고 보고한 바가 있다.⁹ 그러나 국내에서 후두엽 신경낭미충증으로 동측반맹을 보였으나 수술 후 시야의 호전을 보인 한국인에 대한 증례는 우리가 알기로는 본 보고가 최초이다.

결론적으로, 익히지 않은 돼지고기를 섭취한 과거력이 있는 증례의 환자가 동측반맹의 시야 이상을 보이는 경우, *T. solium*에 의한 후두엽 신경낭미충증의 가능성이 있으므로 조영증강 뇌MRI나 CT 촬영을 하고, 혈청과 뇌척수액에서 항체 유무를 확인하여야 한다. 일차 치료로 항기생충제와 스테로이드 투약을 시작하고, 약물 치료에 효과가 없으면 개두술과 낭종절제술을 시행하는 것이 시야 호전에 도움이 된다.

REFERENCES

- 1) Webb CM, White AC Jr. Update on the diagnosis and management of neurocysticercosis. Curr Infect Dis Rep 2016;18:44.
- 2) Son HJ, Kim MJ, Jung KH, et al. Neurocysticercosis: clinical characteristics and changes from 26 years of experience in a university hospital in Korea. Korean J Parasitol 2019;57:265-71.
- 3) Yang HK, Kim CY, Hwang JM. Suprasellar cysticercosis associated with partial third cranial nerve palsy relieved by surgical cyst removal. J Korean Ophthalmol Soc 2009;50:640-4.
- 4) Kong Y, Cho SY, Cho MS, et al. Seroepidemiological observation of *Taenia solium* cysticercosis in epileptic patients in Korea. J Korean Med Sci 1993;8:145-52.
- 5) Fan PC, Chung WC, Soh CT, Kosman ML. Eating habits of east Asian people and transmission of taeniasis. Acta Trop 1992;50:305-15.
- 6) Sako Y, Takayanagui OM, Odashima NS, Ito A. Comparative study of paired serum and cerebrospinal fluid samples from neurocysticercosis patients for the detection of specific antibody to *Taenia solium* immunodiagnostic antigen. Trop Med Health 2015;43:171-6.
- 7) Garcia HH, Gonzales I, Lescano AG, et al. Efficacy of combined antiparasitic therapy with praziquantel and albendazole for neurocysticercosis: a double-blind, randomised controlled trial. Lancet Infect Dis 2014;14:687-95.
- 8) Xiao A, Xiao J, Zhang X, You C. The surgical value of neurocysticercosis: analyzing 10 patients in 5 years. Turk Neurosurg 2016;26:744-9.
- 9) Sharma K, Wahi J, Phadke RV, et al. Migraine-like visual hallucinations in occipital lesions of cysticercosis. J Neuroophthalmol 2002;22:82-7.

= 국문초록 =

후두엽 신경낭미종증에 의한 동측반맹

목적: 좌측 후두엽 신경낭미종증에 의한 우측 동측반맹 소견을 보였기에 이를 보고하고자 한다.

증례요약: 20년 전부터 돼지 생고기를 섭취해 온 52세 남자 환자가 2주 전부터 발생하여 점점 심해지는 두통과 시야 흐림, 우측 반신의 감각 이상을 주소로 내원하였다. 나안시력은 양안 각각 1.0이었고, 험프리자동시야검사에서 우측 동측반맹을 보였다. 이외 안과 소견은 정상이었다. 뇌자기공명영상검사에서 좌측 후두엽에 고리조영증강이 되는 거대한 낭종과 뇌실질내 다른 작은 낭종들이 발견되었다. 혈청학적 검사에서 유구낭미종에 대한 항체 양성 반응을 보였다. 알벤다졸과 스테로이드를 2주간 투여하였으나, 시야의 호전을 보이지 않아 개두술과 낭종절제술을 시행하였고 이후 시야의 호전을 보였다.

결론: 돼지 생고기를 섭취한 과거력이 있는 환자가 동측반맹의 시야 이상과 신경학적 이상 증후를 보이는 경우, 드물지만 신경낭미종증의 가능성을 고려하여야 한다.

〈대한안과학회지 2020;61(9):1115-1120〉

이혜진 / Hye Jin Lee

제주대학교 의학전문대학원 안과학교실
Department of Ophthalmology, Jeju
National University School of Medicine