조영증강 안와 전산화단층촬영 후 자연 호전된 목동맥해면굴셋길

Spontaneous Closure of a Carotid-cavernous Fistula after Contrast-enhanced Orbit Computed Tomography

김병진 · 박혜연 · 신혜영

Byung Jin Kim, MD, Hye Yeon Park, MD, Hye Young Shin, MD, PhD

가톨릭대학교 의과대학 의정부성모병원 안과 및 시과학교실

Department of Ophthalmology & Visual Science, Uijeongbu St. Mary's Hospital, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Uijeongbu, Korea

Purpose: We report a case of spontaneous closure of a carotid-cavernous fistula (CCF) after contrast-enhanced orbit computed tomography (CT).

Case summary: A 80-year-old female was referred to our clinic under suspicion of chronic angle-closure glaucoma because of persistently high intraocular pressure commencing one month prior. Slit-lamp examination revealed a conjunctival injection and corkscrew-like vessel dilatation in the left eye, and a high intraocular pressure. Dilated fundus examination revealed central retinal vein occlusion in that eye. Contrast-enhanced orbit CT revealed a dilated, superior ophthalmic vein in the left orbit, and she was transferred to our department of neurosurgery for digital subtraction angiography (DSA); this is the gold standard imaging modality for the diagnosis of direct and indirect CCFs. DSA was performed two weeks after orbit CT; however, no CCF was visible. Thereafter, the conjunctival injection and the elevated intraocular pressure improved gradually over eight months. We suspect that the CCF closed spontaneously.

Conclusions: Our case highlights the fact that a CCF can close spontaneously after contrast-enhanced orbit CT; ophthalmologists may wish to bear this in mind.

J Korean Ophthalmol Soc 2021;62(10):1455-1458

Keywords: Carotid-cavernous fistula, Clinical symptoms, Computed tomography of the orbit, Spontaneous closure

목동맥해면굴셋길은 동맥혈이 해면정맥굴로 유입되어 해면굴 내 압력의 증가 및 순환장애가 발생하여 생기는 질환이다.¹ 현재까지 목동맥해면굴셋길의 양상에 따라 색전술 등의 수술적 접근이 주된 치료법으로 알려져 있으며, 혈

류의 흐름이 적은 경우에는 자연폐쇄 가능성이 높다고 알려져 있다.

저자들은 목동맥해면굴셋길 환자에서 computed tomography (CT)촬영에선 위눈정맥 확장이 보였으나, 2주 뒤 촬영한 뇌혈관조영술에선 목동맥해면굴셋길을 의심할 만한 특이 소견은 관찰되지 않았으며 이후 임상증상이 호전되는 환자 1예를 경험하였기에, 이러한 CT에 사용된 조영제가 자연폐쇄에 영향을 줄 수 있는지에 대하여 국내외 문헌 고찰과 함께 증상이 호전되는 일련의 과정에 대해 보고하고자 한다.

■ Received: 2021. 5. 28. ■ Revised: 2021. 7. 28.

■ Accepted: 2021. 9. 30.

■ Address reprint requests to Hye Young Shin, MD, PhD
Department of Ophthalmology & Visual Science, Uijeongbu St. Mary's Hospital, College of Medicine, The Catholic University of Korea, #271 Cheonbo-ro, Uijeongbu 11765, Korea
Tel: 82-31-820-3110, Fax: 82-31-820-3516
E-mail: antares78@empal.com

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

© 2021 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

고혈압 외 특이 기저질환은 없으며, 특이 외상력이 없는 80세 여자 환자가 1개월 전 타 안과에서 검진 중, 좌안의 안압상승 소견을 보였다. 만성폐쇄각녹내장 의증하에, dorzolamide-timolol (Cosopt®, Merck & Co, Inc., Whitehouse Station, NJ, USA)을 투여하며 경과 관찰 중 추가 검사 및 진료 위해 의뢰되어 본원 내원하였다. 내원 당시 최대교정 시력 우안 0.7, 좌안 0.5였고, 안압은 비접촉성 안압계로 우안 19 mmHg, 좌안 28 mmHg로 측정되었다. 첫 내원 당시 시행한 세극등현미경검사상 얇은 전방각과 함께 결막충혈, 상공막정맥의 확장이 있었으며(Fig. 1A), 안저검사상 중심 정맥폐쇄(Fig. 1B) 소견이 보였다. 그 외 복시, 눈운동장애 소견은 보이지 않았으며 안구돌출은 저명하지 않았고, 박동성 잡음은 들리지 않았다.

이후 목동맥해면굴셋길 의심하 Iopromide (Ultravist 300 prefilled cartridge inj®, Bayer Korea, Seoul, Korea) 조영제를 사용한 조영제 증강 안와 전산화단층촬영을 시행하였고 우안에 비해 좌안 위눈정맥의 확장이 관찰되었다(Fig. 2A).

목동맥해면굴셋길의 진단 및 평가를 위해 뇌혈관조영술이 필요하기에 신경외과에 검사를 의뢰하였다.² 첫 전산화단층촬영 후 2주 뒤 신경외과에서 혈관조영술을 시행하였으나 전산화단층촬영에서 보였던 좌측 위눈정맥의 확장 및 목동맥해면굴셋길은 관찰되지 않았다(Fig. 2B).

이후 지속적으로 외래 경과 관찰을 진행하였으며, 전산화단층촬영 2개월 및 8개월 후 내원하여 시행한 검사상 결막충혈 및 상공막정맥 확장은 호전되었으며(Fig. 1C, D), 8개월 후 내원 시 교정시력 우안 0.7, 좌안 0.8이었고, 안압은 좌안에 Cosopt 점안액(Merck & Co, Inc.)으로 점안하였으며, 비접촉성 안압계로 우안 16 mmHg, 좌안 18 mmHg로 측정되었고, 그 외 특이 소견은 없어 목동맥해면굴셋길의 자연적 폐쇄 및 증상의 호전이 일어났음을 확인할 수 있었다.

고 찰

목동맥해면굴셋길은 동맥혈이 해면정맥굴로 유입되어 해면굴 내 압력의 증가 및 순환장애가 발생하게 되며 복시, 충혈, 안구돌출, 시력저하 뿐만 아니라, 경우에 따라 안구운

Figure 1. Clinical photography. Initial engorged episcleral veins in slit-lamp (A), tortuous retinal vein with diffuse retinal hemorrhage in fundus (B), two months (C), and eight months after the initial presentation (D).

Figure 2. Radiography. (A) Contrast enhanced orbit computed tomography showed asymmetrical dilatation of left superior ophthalmic vein (arrow), (B) there is not definite dilatation sign of superior ophthalmic vein or any fistula in digital subtraction angiography.

동의 장애 등을 유발하는 것을 의미한다.¹ 목동맥해면굴셋길은 발생 원인에 따라 외상형 및 자발형, 혈류의 흐름에 따라 고혈류형 및 저혈류형, 누공의 기시부에 따라 직접형 및 간접형으로 구분된다.¹ 두부 외상 등에 의해 발생하는 경우를 제외한 간접형 목동맥해면굴셋길의 주된 위험인자는 고혈압, 당뇨, 동맥경화, 교원혈관병 등의 기저질환이 있거나 폐경기의 여성에서 높다고 알려져 있다.³ 목동맥해면굴셋길의 치료 목표는 비정상적인 교통의 완전한 폐색이며, 직접형, 외상형 또는 응급치료가 필요한 증상이 발생한 경우에는 혈관 내 코일, 풍선 및 스텐트를 이용한 색전술 등의 치료를 시행하나 자발형 또는 저혈류형의 경우 자발적 폐쇄도 일어나기도 한다고 알려져 있다.⁴ 다만, 자연폐쇄가 일어나는 원인에 대하여 분석한 문헌 연구는 많지 않으며, 목동맥해면굴셋길에 대해 CT 또는 혈관조영술에서 확인하였으나, 이후 증상이 호전되어 추가 혈관조영술을 진행하여 폐쇄를 확인한 경우는 보고된 바 있으나,⁵ 폐쇄를 확인한 뒤 증상이 회복되는 일련의 과정을 보고한 경우는 없었다.^{5,6} 본 증례의 환자는 목동맥해면굴셋길을 유발할 특이 두부 외상력이 없는 폐경기 여성으로 자발형 목동맥해면굴셋길로 구분할 수 있다. 다만, 혈관조영술에서 셋길이 확인되지 않았기에 혈류에 대한 판단은 불가능하나, 증상의 정도로 보아 저혈류형으로 구분될 수 있다.

자연폐쇄는 간접형 또는 저혈류형에서 보고에 따라 차이가 있으나 약 20-60% 정도 나타난다고 알려져 있으며,⁴ 기전에 대해서는 정확하게 확인된 바 없으나 높아진 정맥압으로 인하여 해면굴 혈관내피의 손상 및 지속적인 혈류량의 저하가 혈액응고를 야기하여 자연폐쇄가 나타날 수 있다고 알려져 있다.⁷ 또한 4주에서 6주간의 경동정맥의 지압을 통해 간접형 목동맥해면굴셋길이 호전될 수 있다고도 알려져 있으나,⁴ 본 환자의 경우 이러한 술기를 시행하지는 않았다. 과거 안와정맥촬영술 직후 자연폐쇄된 증례는 보고된 바 있으나, 이는 위눈정맥으로 직접 투여된 조영제가 혈액 흐름에 역류하게 되어 해면굴과 목동맥 간의 압력 차이를 일시적으로 감소시켜 혈류의 정체를 야기하며, 이로 인하여 혈전이 생성되어 셋길의 자연적인 폐쇄가 나타났을 가능성을 제시한 바 있다.⁸ 여러 문헌을 통해서 진단을 위해 사용한 조영제가 백혈구 축적 및 적혈구의 응집을 야기하며 동시에 혈관수축을 통하여 혈액응고에 관여하였을 가능성이 있으며,⁶ 조영제 사용 후 1-2시간 이내 심근경색이 발생한 증례,⁹ 일과성 허혈 발작, 뇌경색 등을 유발한 혈전이 생성된 증례¹⁰는 보고된 바 있다. 또한 목동맥조영술 시행 후 7일 이내 외상성 목동맥해면굴셋길이 자연폐쇄된 사례가 국내 및 국외에 보고된 바 있다.^{11,12} 다만, 앞서 시행한 논문들에서는 당시 사용된 조영제에 대해서도 자세하게 보

고되지 않았다.^{5,6} 본원에서 전산화단층촬영 시 사용한 조영제는 Iopromide (Ultravist 300 prefilled cartridge inj[®], Bayer Korea)로 비이온성(non-ionic), 저삼투압(low-osmolar) 요오드(Iodine)계 조영제이며, 조영제를 이용한 전산화단층촬영 및 혈관조영술에 주로 사용되는 조영제이다. 앞서 조영제 사용 후 혈전생성에 대해서는 여러 논문에서 언급되었으며, 이온성 조영제보다 비이온성 조영제가 혈액응고의 가능성을 높일 수 있다고 보고된 바 있다.¹³

셋길의 폐쇄 후 증상 호전까지의 기간에 대해서도 명확히 알려진 바 없으나, 폐쇄까지의 기간, 발생기전, 질환의 중증도뿐만 아니라,⁴ 임상증상에 따라 길게는 10여년에 걸쳐 회복되는 양상을 보였으며,⁵ Kirsch et al¹⁴에 따르면 임상증상의 평균 회복기간은 5.4 ± 1.3 개월이었다. 수술적 치료를 진행한 경우에서도, 안압상승, 결막부종 및 안구돌출 등의 증상은 몇 시간 또는 몇 주 내로 빠르게 회복될 수 있으나, 복시 등의 신경학적 증상은 천천히 회복된다고 보고된 바 있다.^{14,15} 본 증례의 경우에도 1개월 후 좌안 교정시력 0.8로 회복되었으며, 2개월째부터 8개월까지 결막충혈 및 상공막정맥 확장은 서서히 호전되었기에, 증상에 따라 짧게는 1개월부터 길게는 8개월 이상 서서히 회복됨을 확인하였다.

본 환자의 경우 CT촬영 전후로 증상이 일련의 호전을 보였기에 조영제로 인한 자연폐쇄를 고려할 수 있다. 다만 타 증례들에서 언급되었듯이 셋길의 폐쇄가 조영제에 의해 발생되었는지 아니면 자연적으로 폐쇄되었는지에 대한 정확한 구분 및 기전을 확인하기 어렵다. 또한 각 증례에서 사용된 조영제의 성분에 대한 확인이 부족하여 본 증례에서 사용한 조영제와 성분적으로 동일한 것인지에 대한 확인이 힘들다는 한계가 있다. 결론적으로 수술적 치료 없이 자연폐쇄된 여러 문헌들을 토대로, 추후 목동맥해면굴셋길이 의심되는 상황에서, 진단의 과정으로서 영상의학적 검사에서 사용되는 조영제가 자연폐쇄를 유발할 가능성을 고려해야 하며, 자연폐쇄 후 1년까지 서서히 증상의 회복이 나타날 수 있기에 증상이 호전되는 일련의 과정에 대하여 알고 있는 것이 중요하다고 생각된다.

REFERENCES

- 1) Ringer AJ, Salud L, Tomsick TA. Carotid cavernous fistulas: anatomy, classification, and treatment. *Neurosurg Clin N Am* 2005;16: 279-95, viii.
- 2) Henderson AD, Miller NR. Carotid-cavernous fistula: current concepts in aetiology, investigation, and management. *Eye (Lond)* 2018;32:164-72.
- 3) Bioussé V, Mendicino ME, Simon DJ, Newman NJ. The ophthalmology of intracranial vascular abnormalities. *Am J Ophthalmol*

- 1998;125:527-44.
- 4) Ellis JA, Goldstein H, Connolly ES Jr, Meyers PM. Carotid-cavernous fistulas. *Neurosurg Focus* 2012;32:E9.
 - 5) Iampreechakul P, Tirakotai W, Tanpun A, et al. Spontaneous resolution of direct carotid-cavernous fistulas: case series and literature review. *Interv Neuroradiol* 2019;25:71-89.
 - 6) Meena US, Gupta P, Shrivastava T, Purohit D. Spontaneous closure of posttraumatic high-flow carotid-cavernous fistula following cerebral angiography. *Asian J Neurosurg* 2016;11:172.
 - 7) Seeger JF, Gabrielsen TO, Giannotta SL, Lotz PR. Carotid-cavernous sinus fistulas and venous thrombosis. *AJNR Am J Neuroradiol* 1980;1:141-8.
 - 8) Nishijima M, Iwai R, Horie Y, et al. Spontaneous occlusion of traumatic carotid cavernous fistula after orbital venography. *Surg Neurol* 1985;23:489-92.
 - 9) Aksu U, Topcu S. Contrast media induced myocardial infarction in patient with subtotal LAD occlusion. *Int J Cardiol* 2015;191:231-2.
 - 10) Davidson CJ, Mark DB, Pieper KS, et al. Thrombotic and cardiovascular complications related to nonionic contrast media during cardiac catheterization: analysis of 8,517 patients. *Am J Cardiol* 1990;65:1481-4.
 - 11) Ye HH, Cho CW, Kim CS, et al. Spontaneous occlusion of traumatic carotid cavernous fistula with pseudoaneurysm formation: management with neuroform stent and coiling: a case report. *J Korean Neurotraumatol Soc* 2006;2:140-4.
 - 12) Isfort A. Spontaneous healing of a traumatic carotid artery-cavernous sinus fistula in a child during angiography. *Klin Monbl Augenheilkd* 1967;150:821-7.
 - 13) Jones CI, Goodall AH. Differential effects of the iodinated contrast agents Ioxaglate, Iohexol and Iodixanol on thrombus formation and fibrinolysis. *Thromb Res* 2003;112:65-71.
 - 14) Kirsch M, Henkes H, Liebig T, et al. Endovascular management of dural carotid-cavernous sinus fistulas in 141 patients. *Neuroradiology* 2006;48:486-90.
 - 15) Meyers PM, Halbach VV, Dowd CF, et al. Dural carotid cavernous fistula: definitive endovascular management and long-term follow-up. *Am J Ophthalmol* 2002;134:85-92.

= 국문초록 =

조영증강 안와 전산화단층촬영 후 자연 호전된 목동맥해면굴셋길

목적: 조영제를 사용한 안와 전산화단층촬영 후 목동맥해면굴셋길이 자연적으로 폐쇄된 증례 1예를 보고하고자 한다.

증례요약: 80세 여자 환자가 내원 1개월 전 비정기적 안과 검진에서 좌안의 안압상승이 확인되었으며, 만성폐쇄각녹내장 의심하에 의뢰되었다. 좌안에서 결막출혈과 corkscrew 양상의 결막혈관의 확장을 보이며, 지속적인 고안압과 중심망막정맥폐쇄가 안저상으로 확인되었다. 이에 시행한 안와 전산화단층촬영에서 좌측 위눈정맥의 확장이 관찰되었으며, 목동맥해면굴셋길이 의심되어 진단을 위한 뇌혈관조영술촬영을 위해 신경외과에 의뢰하였다. 하지만, 2주 뒤 시행한 뇌혈관조영에서는 목동맥해면굴셋길이 관찰되지 않았다. 이후 8개월에 걸쳐 임상양상이 서서히 호전되어 목동맥해면굴셋길의 자연폐쇄가 일어났음을 추측할 수 있었다.

결론: 목동맥해면굴셋길 환자에서 조영제를 사용한 안와 전산화단층촬영 촬영 후 자연폐쇄될 가능성이 있으며, 임상증상이 호전되는 일련의 경과에 대해 아는 것이 중요하다.

〈대한안과학회지 2021;62(10):1455-1458〉

김병진 / Byung Jin Kim

가톨릭대학교 의과대학 의정부성모병원 안과 및 시과학교실
Department of Ophthalmology & Visual Science,
Uijeongbu St. Mary's Hospital, College of Medicine,
The Catholic University of Korea