

상악골절단술 후 외전신경마비를 동반한 경동맥 해면정맥동루

이원학 · 김동률 · 홍광진 · 이정구
한림대학교 의과대학 구강악안면외과학교실

Abstract

Carotid Cavernous Sinus Fistula with Abducens Nerve Palsy after Le Fort I Osteotomy : A Case Report

Won-Hak Lee, Dong-Ryul Kim, Kwang-Jin Hong, Jeong-Gu Lee
Dept. of Oral & Maxillofacial Surgery, College of Medicine, Hallym University

Carotid cavernous sinus fistula(CCSF) is an abnormal communication at the base of the skull between the internal carotid artery and the cavernous sinus. Fistula is almost associated with extensive facial trauma as a result of direct or indirect forces. Most fistulas of traumatic origin develop as a result of fractures through the base of the skull, which cause the laceration of the internal carotid artery near the cavernous sinus.

The signs and symptoms of CCSF are pulsating exophthalmosis, orbital headache, pain, orbital or frontal bruit, loss of visual acuity, diplopia and ophthalmoplegia. Angiography reveals a definite CCSF and a detachable balloon embolization is known to be the treatment of choice.

Even though carotid cavernous sinus fistula is an uncommon complication after orthognathic surgery, several cases of CCSF due to congenital anomalies, pre-existing aneurysms and abnormally thickened maxillary posterior wall have been reported in the literature. We have experienced a case of CCSF after Le Fort I osteotomy for maxillary advancement in skeletal class III patient and the cause, pathogenesis, diagnosis and treatment of this case.

Key Words : Carotid Cavernous Sinus Fistula(CCSF), Le Fort I Osteotomy

1. 서 론

상악골절단술은 골격성 부정교합이나 안모의 형태이상 등을 치료하는데 매우 유용하게 이용되어지고 있다. 상악골절단술 후 발생하는 합병증으로 무혈관성 괴사, 치아손상, 신경손상, 비중격의 천공, 피하기종(subcutaneous emphysema), 해면정맥동혈전증(cavernous sinus thrombosis) 등이 있다¹⁻³⁾. 그밖에 극소수에서 외전신경마비(abducent nerve palsy)와 경동맥 해면정맥동루(carotid cavernous sinus fistula)등이 보고되어졌다. 경동맥 해면정맥동루는 두개안면(craniofacial)손상중 0.17~0.27%에서 발생하고, 이중 중안모(mid-face), 전두부, 뇌기저부의 외상이나

골절로 인한 것이 77% 정도로 대부분을 차지하며, 이외에 하악골의 골절, 선천적으로 발생하는 경우도 보고된 바있다^{4,6)}. CCSF를 치료하지 않았을 때에는 영구적인 신경학적인 문제와 시력장애 및 치명적인 출혈이 발생할 수가 있는데, CCSF은 외상후 발현시간과 증상, 징후가 다양하고, 가끔 심한 머리손상을 받은 환자에서 두통과 동반되어 나타나는 경우가 있어 진단에 어려움이 있다⁴⁾.

본원에서는 골격성 제3급 부정교합 환자에서 상악골의 전방이동을 위하여 르포트 I급 상악골절단술을 시행했던 환자에서 경동맥 해면정맥동루를 경험하였기에, 이에 대한 원인, 증상, 진단 및 치료에 대해 문헌고찰과 함께 증례보고하는 바이다.

Ⅱ. 증례보고

하안모돌출 및 부정교합을 주소로 본원에 내원한 17세 남환으로 골격성 3급 부정교합의 진단하에 상, 하악골의 동시수술을 시행하였다. 전신마취하에 통법으로 상악골절단술을 시행하였으며, 익돌관과 상악골의 분리는 오베게서골도(curved Obwegeser osteotome)을 이용하였으며 분리시 익돌상악 접합부의 골 두께가 비교적 두껍게 느껴졌으나 큰 어려움 없이 분리가 이루어졌다. 상악골의 하방 골절시 좌측 하행구개동맥의 절단에 의한 출혈이 있었으나 bone wax와 압박지혈에 의해 별 어려움 없이 지혈이 이루어졌다. 술후 환자를 회복실로 옮긴 후 환자의 좌측 안구 돌출현상이 발생하여 즉시 안과전문의에 의뢰하였다. 안구돌출계(exophthalmometer)상 우측 15mm, 좌측 21mm로 좌측 안구돌출이 있었고, 안압은 40mmHg로 정상인 10~20mmHg에 비해 안압이 증가되어 있는 소견을 보여 본과에서는 안구후 출혈(retrobulbar hemorrhage)의 의증하에 외측 눈썹(lateral eyebrow) 및 안와하 절개(infra-

orbital rim incision)을 통한 외과적 탐색(exploration) 및 감압술을 시행하였으나, 특이한 혈종소견이 관찰되지 않아 응급으로 컴퓨터 단층촬영을 시행하였다(Fig. 1). 컴퓨터 단층사진상 안구후에 혈종소견이나 상안정맥의 팽창 등의 특이한 소견은 관찰되지 않았다. 이에 안구돌출과 안압상승에 대해서는 steroid와 mannitol을 이용한 약물요법을 시행하여 술후 첫째날 안구돌출은 우측 15mm, 좌측 18mm로 약간 감소하였으나 안압은 전날과 거의 동일하였다. 계속적인 약물치료로 안압은 점차로 감소하였고, 술후 6일째 좌측 안구의 외측방 주시장애에 의한 복시현상이 관찰되었고 시력저하나 잡음(bruit) 등은 관찰되지 않았다(Fig. 2). 이에, 본과에서는 안압증가에 의한 일시적인 외전신경마비로 진단하였고, 따라서 계속적인 경과 관찰을 하기로 하였다.

술후 1개월째 안구돌출 및 안압증가 소견은 많이 감소하였으나, 좌측 안구의 외측방 주시의 장애는 계속되었으며 이때 좌측 안와부 청진시 잡음의 소견이 관찰되었다(Fig. 3). 이에, 컴퓨터 단층촬영을 다시 시행하였으며, 좌측 상안정맥(superior ophthalmic vein)이 심하게 팽창되어 있는



Fig. 1. 수술 직후의 컴퓨터 단층촬영사진으로 안구후에 출혈소견은 보이지 않고 좌측 안구가 돌출되어있는 것을 볼 수가 있다.

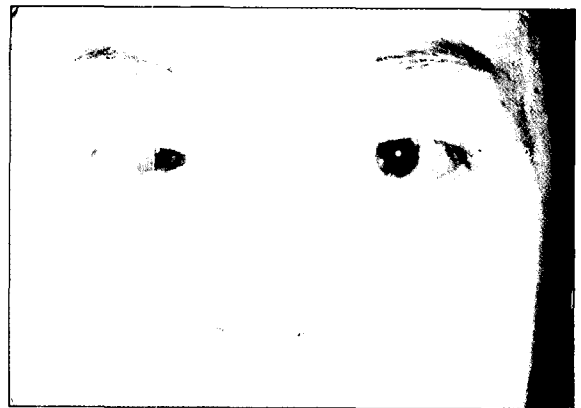


Fig. 2. 술후 6일째 환자 정면사진으로 외측방운동시 좌측 안구의 운동제한을 볼 수 있다.



Fig. 3. 술후 1개월 때 안구의 외측방운동사진으로 좌측 안구의 운동제한이 남아있다.



Fig. 4. 술후 1개월 때 컴퓨터 단층촬영사진으로 좌측 상안정맥이 심하게 팽창되어 있는 것이 관찰됨.

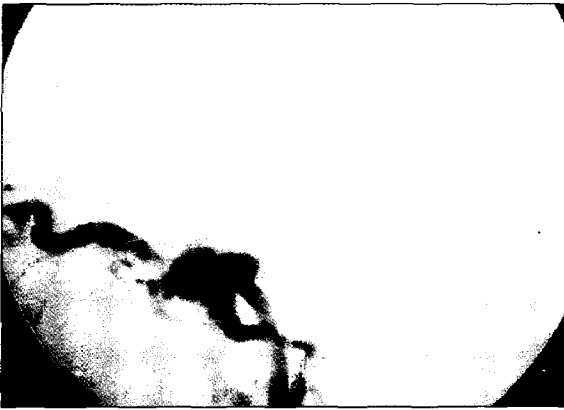


Fig. 5. 혈관조형술사진



Fig. 6. 혈관색전술을 시행한 뒤에 사진



Fig. 7. 술후 3개월 때 사진으로 외측방운동시 좌측 안구운동이 거의 정상적으로 이루어지고 있음을 볼 수 있다.



Fig. 8. 술후 6개월 때 사진으로 안구운동이 정상적으로 이루어지고 있다.

소견이 보여(Fig. 4) 경동맥 해면정맥동류의 최종 진단을 위하여 혈관조형술을 시행하였다. 혈관조형술을 시행한 결과 좌측 해면정맥동내에서 경동맥과 동류가 형성된 소견이 관찰되었으며(Fig. 5), coil과 분리풍선을 이용하여 동류를 폐쇄하도록 시도하였다(Fig. 6). 색전술을 시행한 후 3개월 때 외측방 주시 장애 및 복시현상은 많이 감소하였다(Fig. 7). 6개월이 지난 후에는 외측방 주시는 정상으로 회복되었으며, 복시현상도 사라졌다(Fig. 8).

Ⅲ. 총괄 및 고찰

해면정맥동은 접형골의 골체내에 위치하고 있으며, 상안와열(superior orbital fissure)로부터 측두골 추체부(petrous portion)의 첨부(apex)까지 전,후방으로 분포하고 있다. 해면정맥동은 상안와열을 통하여 상,하안정맥(superior and inferior ophthalmic vein), 접형두정맥동(sphenoparietal sinus)뿐만 아니라 몇 개의 뇌정맥

(cerebral vein)으로부터 혈류를 받으며 후방으로 상,하추체정맥동(superior and inferior petrous sinus)으로 이어진다. 해면정맥동의 외측벽에는 동안신경, 활차신경, 삼차신경의 안신경과 상악신경의 분지등이 경막(dural walls)에 쌓여서 위치하고, 내측에는 내경동맥과 경막이 없는 외전신경이 위치하고 있다⁷⁾(그림 1). 개인에 따라서는 좌,우 해면정맥동사이에 정맥문합(venous anastomosis)이 이루어진 경우가 있어, 실제 한 개의 동정맥류(arteriovenous fistula)가 있더라도 양측성으로 안구증상이 나타날 수가 있다⁸⁾.

경동맥 해면정맥동류는 해면정맥동내에서 내경동맥이나 그 분지 혈관벽의 파괴에 의한 경동맥과 해면정맥동 사이에 발생한 비정상적인 연결이다. 이러한 동류가 발생하는 원인으로서는 주로 외상에 의한 날카로운 골편(bony spicules)의 관통이나 전단력(shearing force)으로 인하여 내경동맥의 해면내(intracavernous)부위가 찢기면서 발생한다⁹⁾. 찢긴 부위를 통해서 높은 압력의 경동맥 혈류가 낮은 압력의 해

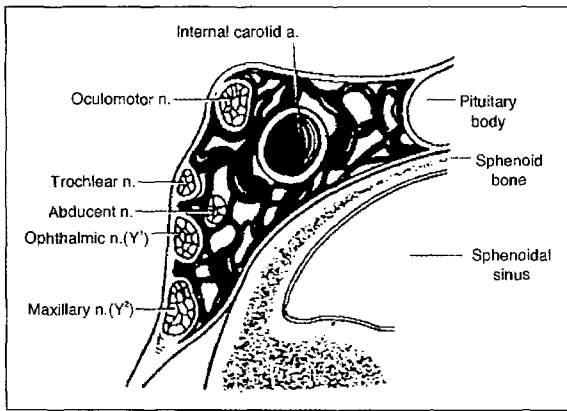


그림 1. 해면정맥동과 인접 구조물

면정맥동내로 유입되어 상대적으로 해면정맥동내의 압력이 높아지게 되고, 안와로부터의 정맥배액(venous drainage)이 억제되면서 안와 정맥울혈(venous congestion)의 임상적 증상과 징후가 나타나게 된다¹⁰. 그 밖의 원인으로는 동맥류(aneurysm)이나 동정맥(arteriovenous)기형과 같은 선천적 기형, 동맥경화, 고혈압, 교원성 혈관질환(collagen vascular disease) 또는 출생시에 자발적으로 발생할 수도 있다¹¹. 이러한 원인등을 살펴볼 때 구강악안면영역에서는 안면외상이나, 악교정수술, 특히 상악골절단술시 익돌상악 접합부를 분리할 때 골도(osteotome)에 과도한 힘이 가해지거나, 골도의 방향을 잘못 위치시킬 경우 또는 과도한 힘으로 하방골절을 시행할 경우에 익돌판의 상방으로 힘이 전달되어 접형골체에서 골절이 일어나면서 해면정맥동내에 위치한 경동맥의 열상이 유발되어 동루가 발생할 수가 있고, 그에 대한 증례도 보고되어졌다^{7,12,13}. 본 교실에서 경험한 증례를 살펴보면, 먼저 익돌상악 접합부의 두께가 비교적 두꺼웠던 환자에서 분리시 커다란 골도를 이용해 너무 강한 힘을 가한 것과 또 완전히 골절단이 이루어지지 않은 상태에서 다소 무리한 힘으로 하방 골절을 시행하므로 인해 동루가 발생하였던 것 같다.

외상후 경동맥 해면정맥동루에 대한 증상의 발현시기는 다양하게 보고 되어졌는데, Stern 등¹⁴은 15증례에서 외상 후 몇 시간에서 최고 11일 때에 발생하는 경우를 보고하였고, Butler 등¹⁵은 3주째까지도 나타나지 않았던 증례를 보고하였다. 이는 루(fistula)의 직경과 시간에 따른 경동맥 해면정맥동루의 혈류역학적 변화에 의한 것으로 생각하고 있다¹².

경동맥 해면정맥동루에 의한 임상 증상으로 안구돌출 94%, 잡음(bruit) 75%, 결막수종(chemosis) 71%, 안근마비 및 복시 60%, 시력상실 46%, 전두부 및 안와부 동통 40% 등이 나타날 수 있다¹⁶. 안구돌출은 일반적으로 정맥배액의 장애나 안정맥에 대한 역방향 정맥혈행(retrograde venous flow)의 증가로 인한 정맥의 울혈에 의해서 나타난

다. 안근마비 및 복시현상은 정맥배액의 억제와 정맥울혈이나 골절편 등에 의한 직접적인 손상에 의해 제3, 4, 6 뇌신경의 부전마비(paresis)로 발생할 수 있다. 특히 외안근중에서도 외직근(lateral rectus muscle)의 마비에 의한 외측방 주시 장애로 복시현상의 증례가 많이 보고되고 있다¹⁷⁻¹⁹. Watts 등¹⁸은 상악골절단술 후 첫째날 우측 안구에서 외측으로 복시현상이 나타났으며 7주후 자발적으로 회복된 증례를 보고하였다. 외전신경 손상의 원인으로 익돌상악 접합부의 분리시 익돌판의 상방으로부터 상안와외열의 하방까지 골절이 발생하여 출혈이나 골편(bony spicule)에 의해 외전신경이 손상을 받았거나, 골도로부터 신경에 직접적으로 힘이 전달되어 나타날 수 있다고 하였다. 7주 후 자발적으로 회복된 이유로는 외전신경의 손상이 단지 신경실행증(neuropraxia)이었을 것이라고 추정하였다. Reiner 등¹⁷은 상악골절단술 후 일시적인 외전신경의 마비(약 5개월간)를 보고하였는데, 술후 컴퓨터 단층촬영시 sella tursica를 통하여 접형골의 골체내에 골절의 소견을 확인하였다. 이러한 골절의 원인은 분명하지는 않지만 익돌상악 접합부의 분리시 과도한 힘이 가해졌거나, 부적절한 골도의 방향 및 익돌판에서 너무 높게 골도를 위치시킨 것등이라고 추정하였다. 따라서, 이러한 골절을 방지하기 위해서는 골도의 방향과 골도에 가해지는 힘이 중요하며, 익돌판에서 항상 낮은 위치에서 전,내,하방으로 위치시킬 것을 추천하고 있다²⁰. 이와 같이 외전신경손상이 많은 이유는 외전신경의 경로가 길고 복잡하여 해부학적으로 변화가 심하고 제 3, 4 뇌신경에 비해 내경동맥에 매우 근접하여 주행하며, 제 3, 4, 5 뇌신경은 경막에 의해 싸여 있으므로 외력에 대해 어느정도 보호가 되지만, 제6 뇌신경은 경막에 의해 싸여 있지 않으므로 외력에 의해 쉽게 손상을 받을 수 있기 때문이다⁷. 본 증례에서도 앞에서 언급한 것과 같이 골절단시 과도한 힘의 전달로 인해 안와정맥의 배액에 장애를 일으키므로써 안압 상승 요인을 유발하여 이로 인한 제6 뇌신경의 압박으로 술후에 외측방 주시 장애가 나타났으며, 색전술로 동루를 폐쇄후에는 차츰 정상으로 회복되는 것을 볼 수 있었다. 잡음은 환자가 확확소리가 난다는지(swish), 웅웅거린다(hum)고 표현을 하게 되고, 머리가 의지되어있을때(dependent)나 앙와위(supine position)일 때 뚜렷히 나타난다¹⁶. 결막수종은 안와정맥에서 증가된 압력과 Schlemm관을 통한 안방수(aqueous humor)의 배액장애를 유발할 수 있는 역방향 혈행에 의해 발생할 수 있다²¹. 결막의 심한 종창은 안검(lid)의 외번(eversion), 공막(sclera)의 심한 노출과 각막 건조(corneal desiccation)을 야기할 수 있고, 이차적인 감염으로 인해 안염(ophthalmitis)이 발생할 수 있다. 시력상실은 망막의 혈류순환의 장애에 의한 망막의 저산소증(hypoxia)에 의해 발생하는데, 심하고 장기적인 울혈은 망막정맥총혈(retinal vein engorgement), 유두부종

(papilledema), 망막출혈, 안신경의 위축(atrophy), 렌즈, 초자체(vitreous), 각막의 불투명화(opacification)가 일일 수 있다²¹⁾.

경동맥 해면정맥동루의 진단을 위해서는 임상적 증후와 증상, 고해상도 컴퓨터 단층촬영, 자기공명촬영 등을 이용할 수 있으며 혈관조영술로 최종 진단할 수 있다. 혈관조형술에서는 두개기저부에서 경동맥과 해면정맥동 사이에 발생한 동루의 소견을 볼 수 있다¹¹⁾.

경동맥 해면정맥동루는 자발적으로 문합되는 경우는 극히 드물어 치료가 필요하다. 초기에는 외과적으로 누공 주위 내경동맥을 절찰(clipping)하거나 혈전, 근육, gelfoam, coil 및 용해성접착제 등을 이용하여 누공을 폐색하였으나, 해면동 주위에는 방계혈관(collateral vessels)이 풍부하기 때문에 누공을 안전하게 막는데는 비효과적이고 오히려 증상을 악화시키거나 다른 합병증이 발생하였다¹³⁾. 따라서, 최근에는 경부나 서혜부에서 혈관조형술과 함께 분리 풍선(detachable balloon)을 이용한 색전술이 보편적으로 널리 사용되고 있다^{22,23)}. 본 증례에서 악교정 수술 직후 촬영한 컴퓨터 단층촬영상에서는 상안정맥의 팽창소견이 관찰되지 않았고, 안와부의 청진시 잡음과 같은 경동맥 해면정맥동루의 전형적인 소견도 나타나지 않았다. 안압감소를 위해 시행한 외과적 탐색에서도 뚜렷한 혈종형성이 관찰되지 않아 약물치료를 시행하였고, 환자는 증세의 호전을 보였으나 외측방 주시장애에 의한 복시현상은 여전히 남아있는 상태였다. 따라서 본 교실에서는 안압증가로 인해 발생한 일시적인 외전신경마비로 판단하고 계속 경과관찰을 하던 중 수술 1개월째 환자가 좌측 안와주위에서 두근두근거린다고 호소하여 청진 결과 잡음이 청진되었다. 이에 컴퓨터 단층촬영을 시행한 결과 좌측 상안정맥의 팽창된 소견이 관찰되어 경동맥 해면정맥동루의 확인 및 치료를 위해 혈관조영술을 하였고, 경동맥 해면정맥동루의 진단하에 색전술을 시행하였다. 색전술 후 외측방 주시장애와 복시현상이 호전되었고, 3개월 때에는 외측방 주시장애와 복시현상이 완전히 사라졌다.

IV. 결 론

경동맥 해면정맥동루는 흔한 경우는 아니지만 상악골절단술시 익돌상악 접합부에 가해진 과도한 힘이나, 잘못된 위치된 골도의 방향, 하방 골절시 완전히 분리되지 않은 상악골을 과도하게 하방으로 골절시킬 경우에도 발생할 수 있다. 따라서 악교정 수술시에 익돌상악 접합부를 분리할 때는 기구의 선택에 있어서 작고(small), 날카로우면서(sharp), 구부러진(curved) 골도를 사용하거나, 골도보다는 micro-oscillating saw를 사용하는 것이 좋을 것 같다. 골도의 위치는 가급적이면 하방으로 위치시킨 후 전, 내, 하방으로 분

리를 시행해야 할 것으로 사료된다. 또한, 상악골의 하방 골절을 시행할 때 후방에서 저항이 느껴지면, 익돌상악 접합부의 분리를 다시 확인하고, 상악후벽이 비정상적으로 두꺼울 가능성이 있을 경우 상악결절(maxillary tuberosity)부위를 선택할 수도 있으며, 하방 골절시 과도한 힘의 사용을 피하는 것이 바람직할 것으로 사료된다. 본 교실에서는 상악골절단술시 발생한 경동맥 해면정맥동루를 경험하고 치료함에 있어서 위와 같은 다소의 지견을 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

1. Lanigan DT, Hey JH, West RA. Major vascular complications of orthognathic surgery: Hemorrhage associated with Le Fort I osteotomies. *J Oral Maxillofac Surg* 48:561-573, 1990.
2. Smuel RB, Chen YR, Chen KT. Unusual complications of the Le Fort I osteotomy. *Plast and Reconstr Surg* 96:1289-1296, 1995.
3. Lanigan DT, Hey JH, West RA. Major complication of orthognathic surgery: False aneurysms and arteriovenous fistulas following orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg* 49:571-577, 1991.
4. Nocini P, Muzio LL, Cortelazz R, Barbaggio A. Cavernous sinus-carotid fistula: A complication of maxillofacial injury. *Int J Oral Maxillofac Surg* 24:276-278, 1995.
5. Walls RD, Helmy ES, Timmis DP. Carotid-cavernous sinus fistula accompanying an isolated mandibular fracture. *J Oral Maxillofac Surg* 47:1215-1221, 1989.
6. Kuroi M, Nagai M, Shimizu T. Traumatic carotid-cavernous fistula associated with a mandibular fracture. *J Oral Maxillofac Surg* 45:526-529, 1987.
7. Lanigan DT, Tubman DE. Carotid-cavernous sinus fistula following Le Fort I osteotomy. *J Oral Maxillofac Surg* 45:969-975, 1987.
8. Sofferan R, Fabian R. Traumatic carotid-cavernous sinus fistula. *Laryngoscope* 87:1140, 1977.
9. Rogers R, Epker BN. Carotid cavernous sinus fistula accompanying mid-facial fractures: Report of case. *J Oral Surgery* 30:429-432, 1972.
10. Hamby WB. Carotid-cavernous fistula. *J Neurosurg* 21:859, 1964.
11. Keltner JL, Satterfield D, Dublin AB, Lee BCP. Dural and carotid cavernous sinus fistulas: Diagnosis, Management and Complications. *Ophthalmology* 94:1585-1600, 1987.
12. Hes J, de Man K. Carotid-cavernous sinus fistula following maxillofacial trauma and orthognathic surgery. *Int J Oral Maxillofac Surg* 17:295-297, 1988.
13. Habal MB. A carotid cavernous sinus fistula after maxillary osteotomy. *Plast and Reconstr Surg* 77:981-985, 1986.
14. Stern WE, Brown WJ, Alksne JF. The surgical challenge of carotid-cavernous fistula: The critical role of intracranial circulatory dynamics. *J Neurosurg* 27:298, 1967.
15. Buller EC, Tarsitano JJ, Wooten NW. Delayed development of carotid cavernous fistula. *Laryngoscope* 80:292, 1970.
16. Garland S, Maloney P, Doku HC. Carotid-cavernous sinus fistula after trauma to the head. *J Oral Surg* 35:832, 1977.
17. Reiner S, Willoughby JH. Transient abducens nerve palsy following a Le Fort I maxillary osteotomy: Report of a

- case. *J Oral Maxillofac Surg* 46:699-701, 1988.
18. Watts PG. Unilateral abducent nerve palsy: A rare complication following a Le Fort I osteotomy. *Br J Oral Maxillofac Surg* 22:212-215, 1984.
 19. Lazow SK, Izzo SR, Feinberg ME, Berger JR. Bilateral abducens nerve palsy secondary to maxillofacial trauma. *J Oral Maxillofac Surg* 53:1197-1199, 1995.
 20. Hiranuma Y, Yamamoto Y, Iizuka T. Strain distribution during separation of the pterygomaxillary suture by osteotomes: Comparison between obwegeser's osteotome and swan's neck osteotome. *J Cranio-Max Fac Surg* 16:13-17, 1988.
 21. Niamtu J, Campbell R. Carotid cavernous fistula. *J Oral Maxillofac Surg* 40:52, 1982.
 22. Debrun G, Lacour P, Vinuela F, Fox A, Drake CG, Caron JP. Treatment of 54 traumatic carotid-cavernous fistulas. *J Neurosurgery* 55:678-692, 1981.
 23. Takenoshita Y, Hasuo K, Toshio M, Oka M. Carotid-cavernous sinus fistula accompanying facial trauma. *J Cranio-Max Fac Surg* 18:41-45, 1990.

저자연락처

우편번호 200-060
강원도 춘천시 교동 153
춘천성심병원 치과
이원학

원고 접수일 1999년 12월 21일
게재 확정일 1999년 12월 29일

Reprint requests

Won-Hak Lee
Dept. of OMFS, Chun-Chon Sacred Heart Hospital College of Medicine, Hallym University
153, Kyo-Dong, Chun-Chon, Kangwon-Do, 200-060 Korea.
Tel. 82-361-252-9970 Fax. 82-361-256-6056

Paper received 21 December 1999
Paper accepted 29 December 1999