

## Case Report

# 내전근 반사를 이용한 뇌간 종양 수술중 신경계 감시의 소아 증례

신현이<sup>1</sup>, 서한길<sup>2</sup>, 김기원<sup>2\*</sup>

서울대학교병원 재활의학과

## Intra-operative laryngeal adductor reflex monitoring during brainstem tumor surgery: a pediatric case

Hyun Iee Shin<sup>1</sup>, Han Gil Seo<sup>2</sup>, Keewon Kim<sup>2\*</sup>

<sup>1</sup>Department of Rehabilitation Medicine, Seoul National University Hospital, Seoul National University College of Medicine

<sup>2</sup>Department of Rehabilitation Medicine, Seoul National University Hospital, Seoul, Korea

### ABSTRACT

The laryngeal adductor reflex (LAR) can successfully monitor vagus nerve intraoperatively. However, there are only a few reports of LAR monitoring in children with brainstem tumors. The authors present a 6-year-old boy who underwent a surgery on right pineoblastoma at cerebellopontine angle. The LAR was elicited by electrical stimulation of the laryngeal mucosa on each side using the surface electrodes attached to the endotracheal tube. The baseline latency of LAR record from the right side was 22.7 ms and 59.3 ms, respectively of R1 and R2. R1 and R2 recording from the left side was 28.2 ms and 65.3 ms, respectively. When compared to those of adults, there was no significant difference in both R1 and R2. This case manifested that LAR monitoring may be feasible in children with brain stem tumor, showing both R1 and R2 components of LAR bilaterally.

**Keywords:** brain stem neoplasms; laryngeal adductor reflex; vagus nerve

## 서론

내전근 반사(laryngeal adductor reflex, LAR)는 후두 점막에 가해진 다양한 종류의 자극에 대한 갑상피열근(thyroarytenoid muscle)의 반응으로[1], 후두를 보호하는 역할을 하는 것으로 알려져 있다. LAR의 구심성 신경은 감각신경인 상후두신경(superior laryngeal nerve, SLN)이며, 원심성 신경은 운동신경인 반회후두신경(recurrent laryngeal nerve, RLN)으로, 이 둘은 모두 미주신경에서 분지하게 된다. 과거에는 RLN의 반응을 측정하기 위한 방법으로서 표면 전극이 부착된 기관삽관 튜브를 통해 갑상피열근 수축시 복합근 활동전위(compound motor action potential, CMAP)을 기록하였다. CMAP의 유발은 수동 신경자극제(hand held neurostimulator)를 이용하여 RLN을 직접 자극하거나, RLN 신경 분지보다 더 근위부에 클립 등을 이용하여 전기신경자극을 주는 방법이 사용되었다[2,3]. 최근에 Sinclair 등은 표면 전극이 부착된 기관삽관 튜브만을 이용하여 LAR 반응을 유발하여 미

주신경 모니터링하는 방법을 소개하였다[4]. 이 방식은 비침습적으로 성대의 내전뿐 아니라, 신경반사 전체를 모니터링할 수 있어 뇌간의 운동, 감각 신경 경로를 효과적으로 감시할 수 있는 방법으로 여겨진다. LAR 반응의 손상은 연하장애, 만성 기침, 성대기능 저하 및 소아 무호흡증을 유발할 수 있다고 알려져 있다[1]. 따라서 뇌간 종양 절제 수술시 신경학적 후유증을 예방하기 위해서 LAR를 통한 미주신경 기능 감시는 수술 후 신경학적 부작용의 예방을 위해 중요하다. 상기 방법은 성인에서는 그 효용성이 연구된 바 있으나, 소아에서는 상대적으로 흔히 시행되지 않았다. 따라서 본 논문에서는 표면 전극이 부착된 기관삽관 튜브를 이용하여 LAR 감시를 성공적으로 시행한 증례를 보고하고자 한다.

## 증례

6세 남아가 지속적 구토 및 식욕 부진으로 타병원 내원하여 시행한 뇌 전산화 단층 촬영상 우측 소뇌교각부(cerebello-

Received December 23, 2019; Revised January 19, 2020; Accepted February 23, 2020

\*Corresponding author: Keewon Kim, Department of Rehabilitation Medicine, Seoul National University Hospital, Seoul, Korea

Tel: +82-2-2072-0744, Fax: +82-2-6072-5244, E-mail: keewonkimm.d@gmail.com

© 2020 Korean Society of Intraoperative Neurophysiological monitoring (KSION)

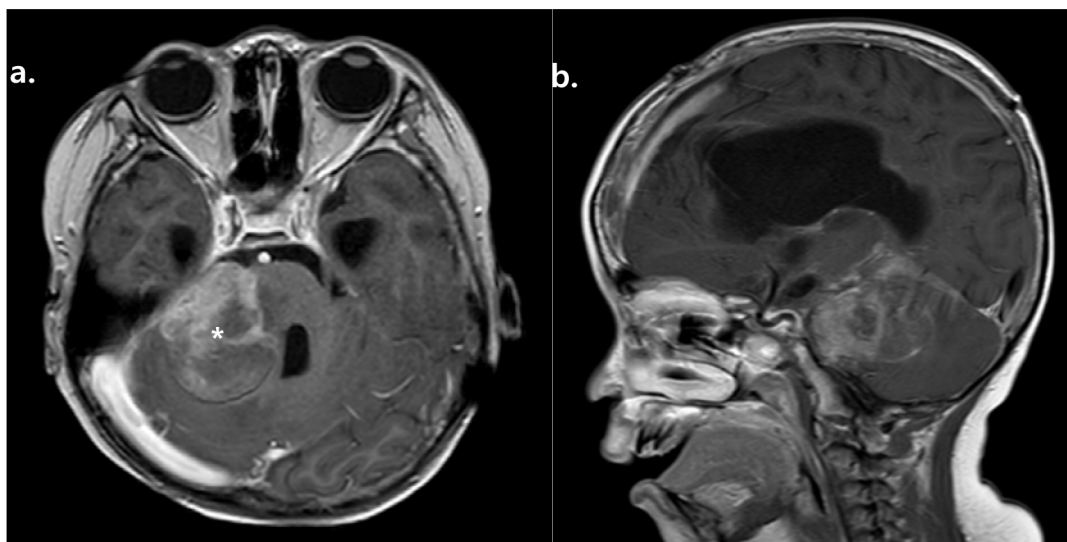
This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

pontine angle, CPA) 및 전교 수조(prepontine cistern) 종양과 이와 동반된 출혈이 발견되어 본원 응급실을 통하여 내원하였다. 상기 환아는 3년 전 본원에서 송과체 섬유 아세포종(pineoblastoma) 절제술을 받은 경력이 있으며, 우측 반신불완전마비(hemiparesis)로 스스로 앉은 자세 유지가 가능했으나, 자가 보행은 어려운 상태였다. 시행한 뇌 자기공명영상에서 CPA에 새로이 발생된 4.3 cm의 출혈성 종양이 발견되었고, 우측 소뇌, 소뇌다리 및 교뇌, 내이도(internal auditory canal, IAC)를 침범하고 있었다(Fig. 1). 환자는 뇌종양 제거를 위한 개두술을 받게 되었고, 마취는 프로포폴(propofol)과 레미펜타닐(remifentanyl)을 이용한 완전정맥마취(total intravenous anesthesia) 방식으로 진행되었다. 기관내삽관 시행 전 로쿠로늄브로마이드(rocuronium bromide)이 1회 정맥주사되었고, 이후에는 사용되지 않았다. 수술중신경계 감시는 NIM-ECLIPSE System®(Medtronic Xomed Inc., Jacksonville, FL, USA) 장비를 이용하였다. 사용한 기관내 튜브(NIM EMG Endotracheal Tube 5 mm I.D. × 6.5 mm O.D. [Medtronic Xomed Inc.])에는 표면 전극(inomed laryngeal electrode for tube with 6-7 mm inner diameter, Germany)을 부착하였다. 양측 갑상피열근(thyroarytenoid)에는 활성 전극과 참고전극이 각각 한 쌍씩 부착되어 모두 4 채널(4 channel)로 자극과 기록을 담당하였다. 기관내 삽관시 표면 전극이 성대 부위에 위치하도록 하였고, 17 cm 길이에서 고정되었다. 미주신경 감시와 더불어 V, VII, XI 및 XII 뇌신경을 감시하기 위해서 양측 후두근(laryngeal muscle), 교근(masseter), 구륵근(orbicularis oris muscle), 승모근(trapezius muscle), 우측 이설근(genioglossus muscle)에 근전

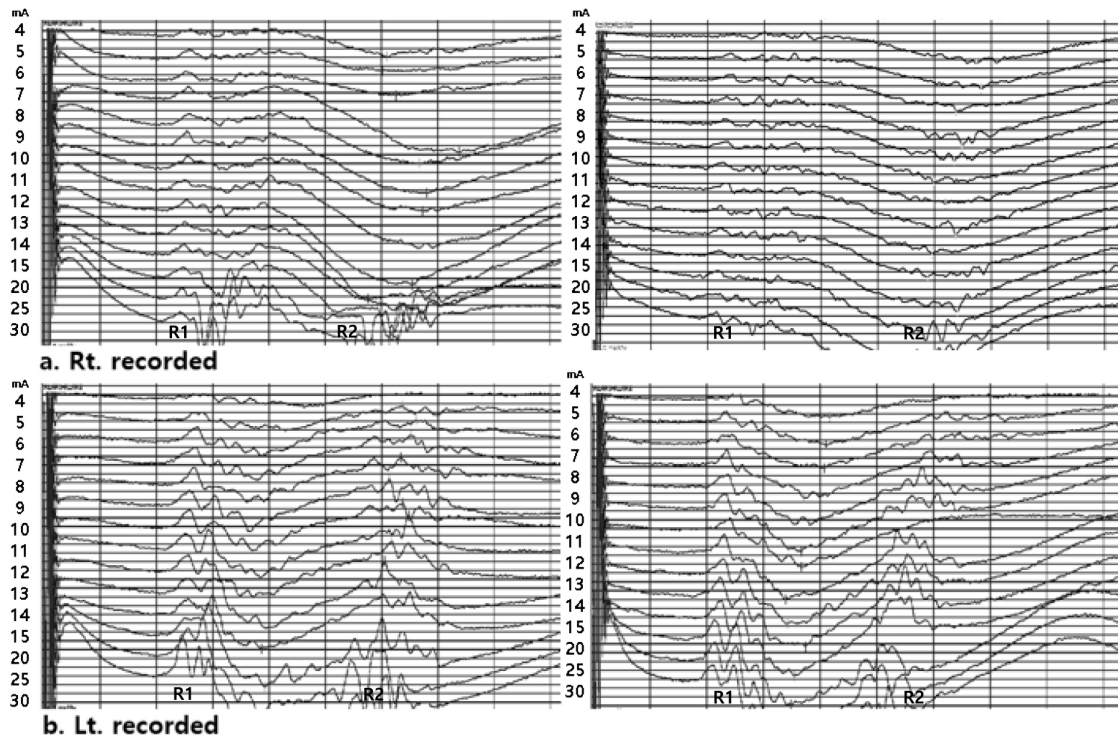
도 검사를 위한 바늘이 삽입되었다. 운동유발전위(motor evoked potential, MEP)는 경두개전기자극(transcranial electrical stimulation) 방식으로 C3-C4 위치에서 200 volt의 8번 반복 펄스를 이용하여 자극하였다. 반복 펄스의 자극 지속시간(pulse duration)은 75 ms, 자극간 기간(interpulse interval)은 40 ms로 유지하였다. SEP의 경우, 상지 18 mA, 하지 28 mA, 자극빈도는 2.9 Hz, 평균화 횟수는 100번으로 하였다. 뇌간청각유발전위(brainstem auditory evoked potentials, BAEP) 감시를 위하여 양측 외이에 귀마개(earplug)를 삽입하였고, 교환전위(alternating polarity)로 99 db의 자극을 27.78 Hz 빈도로 1,000회 평균화 자극 기록하였다. 접지 전극은 허벅지 부위에 부착하였다. 자극에 의한 복합근육활동전위(compound muscle action potential)가 유발된 경우, 복합근육활동전위가 관찰된 근육들을 바로 신경외과 의사에게 알렸다. 이에 따라 전신 마취 하에 두개골 절제술 및 종양 제거술을 시행받았다.

LAR은 우측과 좌측 각각의 후두 점막의 자극에 의해 발생된다. 기관삽관 튜브에 부착되어 있는 양측 표면 전극에서 양극성 전기 자극을 발생시키게 되며, 우측과 좌측을 차례대로 자극하였고, 성대 근육 반응은 자극면의 반대쪽 전극을 통해 기록되었다. 4 mA부터 시작하여 최대 30 mA의 강도로 단일 자극을 200  $\mu$ s 지속 시간으로 종양절제시작 전, 후 시행하였다.

양측 모두에서 R1, R2 파형이 관찰되었다(Fig. 2). 우측에서 기록된 LAR 기저 잠시(baseline latency)의 평균은 R1, R2 각각  $22.7 \pm 5.4$  ms 및  $59.3 \pm 6.8$  ms이었다(Table 1). 좌측에서 기록된 R1과 R2는 각각  $28.2 \pm 4.3$  ms와  $65.3 \pm 5.9$  ms로 나타났다. 자극 강도를 높일수록 R1에 비해 R2의



**Fig. 1. Pre-operative brain magnetic resonance images of the subject.** Fluid attenuated inversion recovery (FLAIR) images of the subject showing (a) axial view and (b) sagittal view, respectively. Asterisk shows the cerebellopontine angle of the brain, invading both the cerebellum and pons.



**Fig. 2.** LAR recorded from left and right vocal cord following contralateral vocal cord stimulation at the beginning and end of the surgery. Figures from left to right, at the beginning to the end of the surgery. LAR was recorded at gradually increasing intensity of 4 mA to 30 mA. Both the R1 and R2 components are shown. LAR: laryngeal adductor reflex.

**Table 1.** Latency of LAR recorded from left and right vocal cord with contralateral vocal cord stimulation

	Before <sup>1)</sup>		After <sup>1)</sup>	
	R1	R2	R1	R2
Right recording (ms)	22.7±5.4	59.3±6.8	24.2±7.7	54.2±9.8
Left recording (ms)	28.2±4.3	65.3±5.9	27.3±4.9	68.6±5.2

Values are in mean±SD with values from each stack of different stimulation intensities.

<sup>1)</sup> Before and after surgical resection of the tumor.

LAR: laryngeal adductor reflex.

잠시가 짧아지는 경향을 보였다. 좌측 성대에서 기록된 R1과 R2의 잠시는 우측보다 느린 것으로 나타났다. 양측 LAR은 수술이 끝날 때까지 유지되었으며, 유의한 변화를 보이지 않았다. 그 외의 수술중신경계감시에서도 유의한 감소 및 소실은 관찰되지 않았다. 환자는 수술 후 3개월 추적 관찰 시까지 연하장애를 포함한 후유증이 관찰되지 않았다.

## 고찰

6세 소아에서 기관삽관 튜브 및 표면 전극을 이용하여 수술 중 LAR 감시를 하였을 때, 이전 연구 기록을 참고하여 성인의 LAR 기저 잠시와 비교시 R1과 R2의 잠시는 뚜렷한 차이가 없었다[4,5]. 성인에서 LAR를 이용한 미주신경 감시에 관한

연구는 몇 차례 보고된 바가 있다. Sinclair 등이 21명의 성인을 대상으로 표면전극 부착 기관삽관 튜브를 이용하여 수술 중 미주신경 감시를 시행하였고, LAR은 대상자 전부에서 양측 유발되었다[4]. 평균 R1 반응 잠시는 22.95 ms로 보고하였다. R2 반응은 14명에서만 유발되었으며, 잠시는 60.8 ms로 보고하였다. Sinclair 등의 다른 연구에서 같은 방식으로 수술 중 미주신경 감시를 시행하였고, 15명의 성인 중 10명에서 R2가 유발되었고, 양측 R1반응 잠시는 평균 22.3 ms, R2의 경우 60.5 ms로 나타났다[5]. 본 연구에서는 6세의 소아에서 R1, R2 모두 유발되었으며, R1은 25.45 ms, R2는 62.3 ms로 성인의 R1, R2 잠시와 유사하였다. 또한 본 연구에서는 좌측 성대에서 기록된 R1, R2 모두의 잠시가 우측보다 느린 것으로 나타났는데, 이는 RLN의 해부학적 구조에 기인한 것

로 생각할 수 있다. 좌측 RLN은 대동맥 하부를 지나게 되어 우측 RLN보다 길기 때문인 것으로 여겨진다. 또한, 본 연구에서는 자극 강도를 점차 높여가며 R1, R2를 관찰하였는데, R2의 경우 자극 강도가 높아질수록 잠시가 짧아지는 경향을 보였다. 마취상태의 인간에서 R1에 비해 R2는 꽤 가변적인 것으로 알려져 있다. 성인을 대상으로 한 연구에서 67%의 환자에서 LAR의 R2 부분이 관찰되지 않았고, 24%의 환자에서 수술이 끝날 때에는 R2가 사라진 것으로 보고되었다[4]. 이는 수술 과정이나 예후보다는 흡입 마취제의 영향인 것으로 알려져 있다 [4,5]. Sinclair 등의 이전 연구에서 자극 강도를 4 mA 정도로 시행한 것을 고려하여, 보다 센 강도로 자극할 시 R2의 일관성 및 수술 후반부까지 지속력을 높일 수 있을 지 연구해볼 필요가 있다. 또한 이전 연구[4-7]에서는 LAR의 잠시에 대해서만 보고하였는데, 이는 같은 강도의 자극에서도 진폭은 개인차가 크기 때문일 것이다[5]. 또한 본 증례에서도 관찰되듯이 LAR 파형은 R1, R2 모두 다상성(polyphasic)의 양상을 띄고 있어 잠시보다 표준화 되기 어려워 충분한 데이터의 축적 후 보고할 수 있을 것이다.

본 증례에서는, LAR을 이용한 미주신경 감시 및 후두근 MEP 감시가 이루어졌다. 갑상선 수술 등 RLN손상의 위험이 있는 수술에서는 LAR을 이용한 monitoring 위주로 시행할 수 있겠으나, 뇌종양 절제술 시에는 후두근 MEP를 함께 시행하는 것이 바람직하다. 뇌간 종양 절제시 미주-미주신경 반응(vagus-vagal reflex)를 통해 뇌간내 반응고리에 포함된 뇌간의 뇌신경핵 및 RLN을 포함한 미주신경 분지 등의 손상을 확인하는 것과 함께 뇌피질에서 후두근육에 이르는 운동신경경로의 감시가 필요하기 때문이다. 또한 2019년 Ichino 등은 후두근 MEP가 RLN의 손상 역시 반영할 수 있다고 보고하였다 [8]. 따라서 두 방법 모두를 이용하여 미주신경을 감시하는 것이 감시의 정확도를 높일 수 있을 것이다.

소아에서 LAR 반응을 이용한 수술중 미주신경 감시를 보고한 연구를 고찰해 보면, Costa 등이 3명의 소아 환자를 대상으로 4번 뇌실내 종양 제거술중 LAR 감시를 보고하였다[9]. 소아의 기도는 직경이 작아 양측 신경 자극 및 기록이 어려운 점을 고려하여 후크 와이어를 이용하여 양측 성대에 전극을 부착하였다. LAR의 기록은 R1과 R2가 구분되지 않았다. 30 ms 정도의 잠시가 기록되었고, 잠시는 좌측이 우측에 비해 큰 것으로 나타났다. Ulkatan 등은 이 결과를 R1 잠시가 artifact와 함께 기록된 것이라고 판단하였다[7]. 반면에 본 연구에서는 R1과 R2 모두 명확히 기록되었으며, 수술이 끝날 때까지 유지되었다. R2가 수술 시간 내내 TIVA 마취를 한 소아에서 유지되었다는 점은 성인에서도 R2가 소실되는 경우가 30%에 육박했던 점[4]을 고려하면, 매우 흥미로운 점이다. R2는 미주 신경분 아니라, 연수를 포함한 뇌간 전반적 기능을 대변한다고

볼 수 있다[10]. 따라서 소아에서 R1, R2 모두 기록이 되고 수술이 끝날 때까지 유지되었다는 본 보고에 따라 소아에서 뇌간 종양 수술시 LAR 감시는 그 임상적 유용성이 매우 높다고 판단된다. 본 연구에서는 또한 기관삽관의 표면 전극을 이용하여 성공적으로 양측 LAR 반응을 기록하였기 때문에, 이전에 보고되었던 연구[7,9]에서 이용하였던 hook wire와 같은 침습적 도구를 사용할 필요가 없어 임상적으로 이용하기 더 용이하다. 소아에서 기관삽관의 표면전극을 이용한 양측 R1, R2를 포함한 LAR을 기록한 보고는 지금까지 없다. 따라서 본 증례를 바탕으로 추후 소아에서도 LAR을 이용한 수술중신경계감시를 시행할 수 있을 것이다. 또한, 소아의 데이터를 축적하여 연령에 따른 정상 잠시 등의 지표를 도출하는 후속연구가 필요할 것이다.

결론적으로, 소아의 뇌간종양제거 시 기관 삽관 튜브의 표면전극을 이용한 LAR 감시가 양측 모두에서 가능하며, 이는 수술 후 뇌간 부위의 손상으로 인한 후유증을 예측하고, 예방하는 데에 도움이 될 것으로 생각된다.

## Ethical approval

This article does not require IRB/IACUC approval because there are no human and animal participants.

## Conflicts of interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

## ORCID

Hyun Iee Shin, <https://orcid.org/0000-0002-9748-7585>

Han Gil Seo, <https://orcid.org/0000-0001-6904-7542>

Keewon Kim, <https://orcid.org/0000-0001-6597-578X>

## References

1. Domer AS, Kuhn MA, Belafsky PC. Neurophysiology and clinical implications of the laryngeal adductor reflex. *Curr Otorhinolaryngol Rep.* 2013;1(3):178-82.
2. Phelan E, Potenza A, Slough C, Zurakowski D, Kamani D, Randolph G. Recurrent laryngeal nerve monitoring during thyroid surgery: normative vagal and recurrent laryngeal nerve electrophysiological data. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012;147(4):



- 640-6.
3. Schneider R, Randolph GW, Sekulla C, Phelan E, Thanh PN, Bucher M, et al. Continuous intra-operative vagus nerve stimulation for identification of imminent recurrent laryngeal nerve injury. *Head Neck*. 2013;35(11):1591-8.
  4. Sinclair CF, Téllez MJ, Tapia OR, Ulkatan S. Contralateral R1 and R2 components of the laryngeal adductor reflex in humans under general anesthesia. *Laryngoscope* 2017;127(12):E443-8.
  5. Sinclair CF, Téllez MJ, Tapia OR, Ulkatan S, Deletis V. A novel methodology for assessing laryngeal and vagus nerve integrity in patients under general anesthesia. *Clin Neurophysiol*. 2017;128(7):1399-405.
  6. Roldan MDLAS, Téllez MJ, Ulkatan S, Sinclair CF. Continuous vagal neuromonitoring using the laryngeal adductor reflex: can preincision dyssynchrony predict intraoperative nerve behavior? *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2019;161(1):118-22.
  7. Ulkatan S, Téllez MJ, Sinclair C. Laryngeal adductor reflex and future projections for brainstem monitoring. Reply to "A method for intraoperative recording of the laryngeal adductor reflex during lower brainstem surgery in children". *Clin Neurophysiol*. 2018;129(11):2499-500.
  8. Ichino T, Tanaka S, Tanaka R, Tanaka N, Ishida T, Sugiyama Y, et al. Transcranial motor-evoked potentials of laryngeal muscles for intraoperative neuromonitoring of the vagus nerve during thyroid surgery. *J Anesth*. 2019;33:221-9.
  9. Costa P, Gaglini PP, Tavormina P, Ricci F, Peretta P. A method for intraoperative recording of the laryngeal adductor reflex during lower brainstem surgery in children. *Clin Neurophysiol*. 2018;129(11):2497-8.
  10. Mochida A. Reflex control on laryngeal functions vibration effect of the laryngeal mucosa on recurrent laryngeal nerve reflexes. *Nippon Jibiinkoka Gakkai Kaiho*. 1990;93(6):938-48.