

Case Report

큰 구멍 수막종 수술에서 수술 중 신경생리학적 검사: 증례보고 및 문헌 고찰

박상구¹, 주병억^{2*}

¹건국대학교병원 신경외과

²순천향대학교 서울병원 순천향대학교 의과대학 신경과

Intraoperative neurophysiological monitoring for foramen magnum meningioma: a case report and review of literature

Sang-ku Park¹, Byung-Euk Joo^{2*}

¹Department of Neurosurgery, Konkuk University Medical Center, Seoul, Korea

²Department of Neurology, Soonchunhyang University Seoul Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, Seoul, Korea

ABSTRACT

Meningiomas are slow-growing benign tumors that arise at any location where arachnoid cells reside. Foramen magnum meningiomas (FMM) are rare tumors, accounting for only 1.8 percent to 3.2 percent of all meningiomas. FMM is one of the most challenging types of meningioma to treat because a large number of vital neurovascular structures are crowded together in this deeply hidden central area. The introduction of intraoperative neurophysiologic monitoring (IONM) significantly reduced the risk of neurovascular structure damage during surgery for FMM. In this article, we have thought the danger during FMM surgery while reviewing case who occurred neurovascular damage during surgery despite IONM.

Keywords: foramen magnum meningioma; intraoperative neurophysiological monitoring

서론

수막종(meningioma)은 두개강내 종양의 약 20%의 발생 빈도를 보이는 비교적 흔한 종양이다. 수막의 거미막세포나 거미막 모자세포에서 발생하고, 일반적으로 그 성장속도가 느린 양성종양으로 알려져 있으며, 수술로써 완전 적출을 한 후 완치가 가능하다.

큰구멍(foramen magnum) 부위에 발생하는 수막종은 전체 수막종의 1.8%~3.2%로 알려져 있다. 뇌척수연접부위(craniospinal junction)의 발생하는 큰구멍 수막종은 서서히 진행되는 양상뿐 아니라, 위치적인 특성으로 인해 증상 발현 이후 진단까지 상대적으로 오랜 시간이 걸리는 것으로 알려져 있다. 큰구멍수막종은 큰구멍을 중심으로 전방 및 외측(anterior and lateral)부위가 후방 외측(posterolateral)보다 더 자주 발생한다[1]. 일반적인 증상으로 후두부 통증

(posterior cervical pain)이 있으며, 목을 움직이거나 기침, 재채기와 같은 두개 내압(intracranial pressure)을 높이는 조작에 의해 증상이 악화되기도 한다. 뇌졸기 및 소뇌 압박으로 인해 보행 장애(gait disturbances), 복시(diplopia), 연하 곤란(dysphagia), 호흡 곤란(dyspnea), 괄약근 장애(sphincter disturbances), 구토(vomiting), 메스꺼움(nausea) 등이 일반적인 증상 중 일부이고, 가장 심각한 신경학적 증상으로는 반측성 마비/사지마비(hemiparesis/plegia, quadriplegia/plegia)와 감각 소실(sensory loss)이다.

큰구멍수막종은 주변의 중요한 혈관들과 뇌신경들에 둘러싸여 있기 때문에, 많은 신경외과 의사들에게 종양 수술시 많은 심리적 압박감을 주며, 진단방법과 미세수술 기법의 발달에도 불구하고, 여전히 수술이 쉽지 않고, 시간이 많이 소요되는 종양이다[2]. 하지만, 수술중 신경생리학적 검사(intraoperative neurophysiologic monitoring, IONM)를 적용하므로,

Received June 29, 2020; Revised August 13, 2020; Accepted September 4, 2020

*Corresponding author: Byung-Euk Joo, Department of Neurology, Soonchunhyang University Seoul Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, Seoul 05029, Korea

Tel: +82-2-709-9224, Fax: +82-2-710-3098, E-mail: faithjoo17@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.

수술 중 혈관 및 신경손상 발생을 크게 예방할 수 있게 되었다. 우리는 큰 구멍 주변부의 거대 뇌수막종을 보인 환자에서 수술 중 신경생리학적 검사의 결과를 분석하고, 이에 대한 유용성에 대해 고찰해 보았다.

증례

1. 임상 증상(clinical presentation)

51세 여자 환자가 1년 전부터 관찰된 뒤통수 중심의 목직한 두통을 주소로 내원하였다. 내원 당시, 환자는 두통과 함께 간헐적으로 구음장애 및 복시를 호소하였고, 말을 할 때 혀가 뒤로 당겨지는 듯한 불편감을 호소하였다. 내원 당시 시행한 신경학적 진찰상 양측 상하지의 근력은 MRC(medical research council) grade 5로 관찰되고, 감각 저하 소견은 관찰되지 않았다. 상기질환에 대해 기질적 병변 확인을 위해 뇌 자기공명영상 검사를 시행하였고, 검사 결과 큰 구멍(foramen magnum) 부위에 뇌줄기를 앞쪽에서 압박하는 약 3 cm × 2 cm 크기의 수막종(meningioma)으로 의심되는 종양이 관찰되었다(Fig. 1). 이에 대한 치료를 위해 수술을 시행하기로 하였다.

2. 마취(anesthesia) 및 수술

마취는 프로포폴(propofol) 4 µg/mL와 레미펜타닐(remifentanyl) 3 ng/mL를 사용하여 완전정맥마취(total intravenous anesthesia, TIVA)를 시행하였다. 원활한 운동유발전위 측정을 위하여 사연속 반응비(train of four ratio)는 첫번째 반응 대비 마지막 반응을 50% 이상으로 유지하도록 하였다.

큰구멍수막종을 제거하기 위해 뒤통수밑머리뼈절개 접근법(suboccipital craniotomy approach)을 시행하기로 하였다. 환자는 옆으로 눕히고 왼쪽어깨가 위로 올라가도록 하였고, 얼굴은 바닥을 향하도록 하여서, 뒤통수 가운데에서 약간 왼쪽 부위를 절개하여 큰구멍수막종을 제거하기로 하였다.

3. 신경계 추적 감시(intraoperative neurophysiological monitoring)

IONM은 경두개운동유발전위, 체성감각유발전위뿐 아니라, 수술 부위 접근할 때 뇌신경 11번 및 12번 신경을 보호하기 위해 자유근전도검사(free running EMG)를 시행하였다. 감시장비는 Xltek Protektor IOM system (Natus Medical Incorporated, Pleasanton, CA, USA)를 이용하였다.

운동유발전위는 C3-C4 부위에 항전압(constant voltage) 방식으로 연속으로 5회 반복하여 자극하였고, 자극 간격(interpulse interval)은 500 Hz로 하고, 자극폭(pulse duration)은 0.05 msec 방식을 이용하였다. 좌, 우측 반구의 C3-C4 운동영역 부위의 두피에 양극자극(anodal stimula-

tion)을 가하여서 발생하는 복합근활동전위(compound muscle action potential, CMAP)를 측정하였다. 기록은 상지에서는 짧은엄지벌림근(abductor pollicis brevis, APB), 새끼벌림근(abductor digiti quinti, ADQ)에서 측정하였고, 하지에서는 앞정강근(tibialis anterior, TA), 엄지벌림근(abductor hallucis, AH)에서 측정하였다. 또한 수술 부위와 관련되어 있는 입 둘레근(orbicularis oris), 턱끝근(mentalis), 등세모근(trapezius), 혀(tongue) 근육에서 유발된 근육의 파형도 기록하였다[3-5].

체성감각유발전위는 상지에서는 정중신경(median nerve), 하지에서는 뒤정강 신경(posterior tibial nerve)의 원위부를 자극하였다. 자극은 항전류(constant current) 방식으로 자극 세기는 상지는 15 mA, 하지는 25 mA로 하고, 자극폭은 0.2 msec, 자극빈도는 2.81 Hz, 50번의 평균화(averaging trials)로 검사를 하였다[6,7]. 검사 진행은 좌측 상지, 우측 상지와 좌측 하지, 우측 하지 네 곳을 자동으로 장비에서 순차적으로 자극하는 방식으로 동시에 사지의 파형을 기록하며 분석하였다[8]. 기록전극은 10-20 system을 기준으로 하여 피질전위(cortical potential)인 C3'(C3보다 2 cm posterior 부위), Cz'(Cz보다 2 cm posterior 부위), C4'(C4보다 2 cm posterior 부위)와 피질하전위(subcortical potential)인 cervical 5 level (C5s)을 활동전극으로 하고 Fpz를 기준전극으로 측정하였다[9].

4. 수술 상황 및 수술 후 상태(surgical procedure and outcome)

운동유발전위 및 체성감각유발전위 파형의 진폭이 50% 이상 감소하거나, 절대 잠복기가 10% 이상 연장되면 경고를 하고, 진폭이 80% 이상 감소하고 절대 잠복기가 10% 이상 연장되면 수술을 중단하고 중재술을 고려해야 한다는 경고기준(warning criteria)을 적용하였다[4]. 수술 시작시에는 운동유발전위와 체성감각유발전위 파형이 정상적으로 잘 측정되었다(Fig. 2-A). 수술 중 소뇌를 견인하여 시야를 확보하고, 두극자극기(ipolar stimulator)를 사용하여, 종양을 확인한 후 종양을 떼어가는 과정 중에 운동유발전위 파형의 진폭이 갑자기 80% 이상 감소하였다가 50%까지 회복하였다가 몇차례 반복되었다(Fig. 2-B), 운동유발전위 파형의 변화가 먼저 발생하였고, 이후, 파형의 진폭이 더 감소하면서, 오른팔 체성감각유발전위 파형의 진폭도 50% 감소하였으며(Fig. 2-C), 결국 양측 운동유발전위 및 체성감각유발전위의 모든 파형이 소실되었다(Fig. 2-D). 수술 중 소실된 운동유발전위와 체성감각유발전위 파형의 진폭은 수술 종료 시까지 회복되지 않았다. 수술 직후 환자는 신경학적 진찰상 양측 상하지의 motor grade II 이하로 관찰되었고, 구역반사가 유발되지 않았고, 자발 호흡을

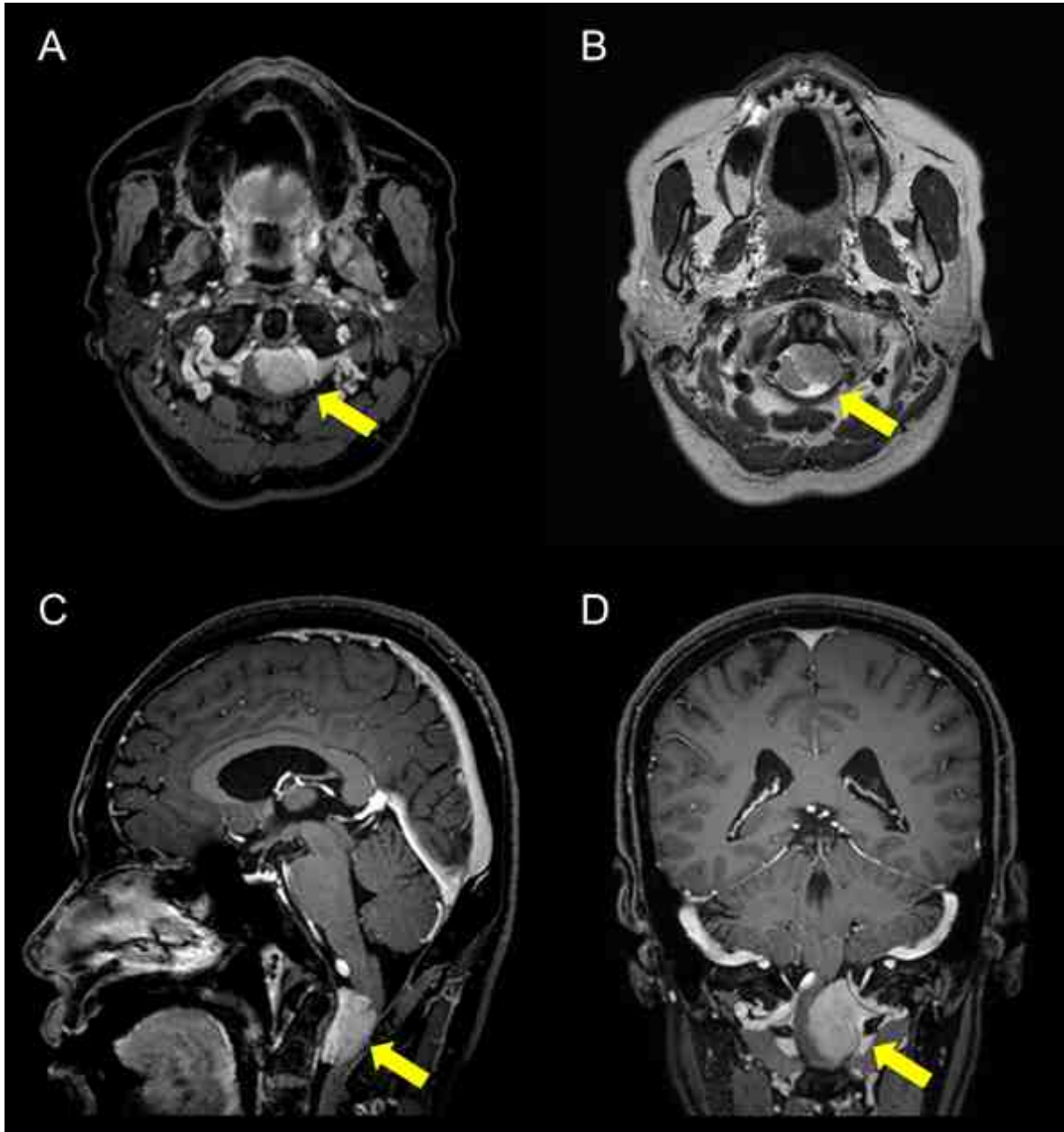


Fig. 1. Brain magnetic resonance imaging of the patient (A: T1 axial view; B: T2 axial view; C: T1 sagittal view; D: T1 coronal view) T2 (A) and T1 (B) in sagittal view. MRI shows intradural meningeoma in the right side of foramen magnum, with 2.7 × 1.8 cm in size. MRI: magnetic resonance imaging.

못하여 인공호흡기로 보조하여 호흡이 유지되었다. 수술후 발생한 증상으로 볼 때, 중앙제거 과정 중 숨뇌(medulla)에 실질적인 손상이 발생한 것으로 추정된다. 다행히, 수술 1주일 뒤, 환자의 자발호흡이 회복되고, 삼킴기능 일부 호전 양상을 보였다. 또한, 수술 약 3개월 뒤, 환자의 상태를 재평가하였을 때, 환자는 스스로 수저를 사용하여 식사할 정도로 양측 상지의 근력은 회복되었으나, 양측 하지의 근력의 회복은 경미하여 독립보행은 어려운 상태였다.

고찰

1. 큰구멍에 대한 위치 설명

큰구멍수막종은 두개척수접합부(cranio-spinal junction)의 거미막(arachnoid)에서 발생한다. 큰구멍수막종 영역의 경계는 앞으로 경사대(clivus)의 아래쪽 1/3에서 2번째 경추의 위쪽 가장자리까지이고, 옆으로는 경정맥결절(jugular tubercle)에서 2번째 경추 박판(laminae)의 위쪽 가장자리까

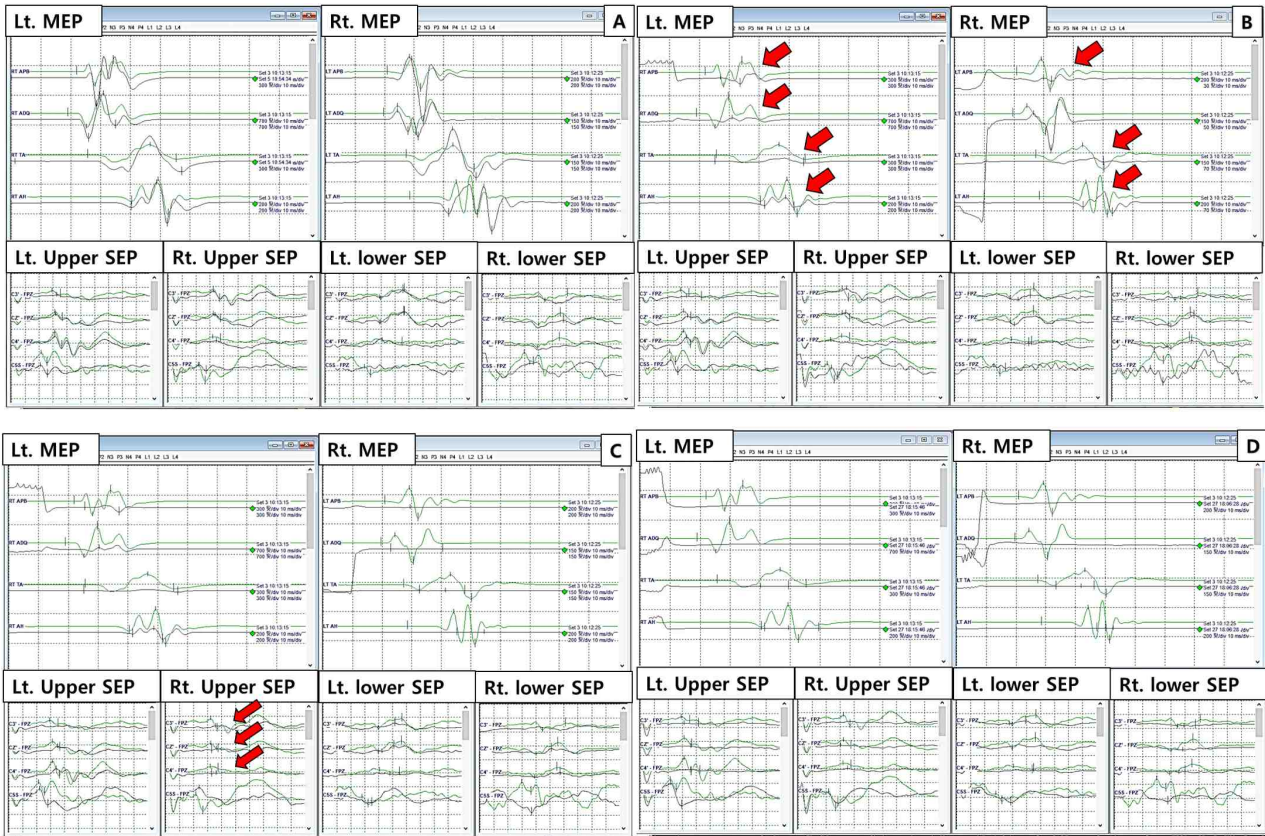


Fig. 2. Intraoperative neurophysiological monitoring of motor evoked potential and somato-sensory evoked potential monitoring of the patient during foramen magnum surgery. Fig. (A) in which the waveform of the MEP is stably observed during surgery. Fig. (B) in which the amplitude of the MEP waveform decreased sharply. Fig. (C) in which the amplitude of the MEP waveform was further reduced, Rt. the amplitude of the SEP waveform also decreased. Fig. (D) in which all waveforms suddenly disappeared during tumor removal. However, the measurements in the C5s do not show any change. Green line: baseline waveform; Black line: tested waveform; MEP: motor evoked potential; SEP: sensory evoked potential.

지이며, 뒤쪽으로 편평후두골(squamous occipital bone)의 앞쪽가장자리(anterior edge)에서 C-2 가시 돌기까지 뒤쪽(spinous process)까지이다[8].

2. 큰구멍 주변에 있는 주요 신경과 혈관 구조물 설명

큰구멍 주변에는 외과가가 알아야 할 몇 가지 중요한 신경 해부학 및 혈관 구조가 포함되어 있다. 주요 신경 구조물로는 소뇌 편도(cerebellar tonsils), 아래소뇌별레(inferior cerebellar vermis), 제4심실(fourth ventricle), 숨뇌의 꼬리측면(caudal aspect of the medulla), 하부 뇌신경(lower cranial nerves/ 뇌신경 9-12번), 척수의 입쪽부분(rostral aspect of the spinal cord) 및 상부 경부신경(upper cervical nerves/ C1, C2)를 포함한다.

제 9 뇌신경과 제 11 뇌신경은 앞쪽 숨뇌(anterior medulla)를 따라 일련의 잔뿌리(rootlets)로 발생하며, 제 11 뇌신경의 척수 성분(spinal component)은 척수의 앞쪽 및 뒤쪽 척수의 잔뿌리(rootlets of the spinal cord) 사이에서 발

생한다. 척추보조잔뿌리(spinal accessory rootlets)는 합쳐져서 신경의 9번째, 10번째, 11번째 및 머리뼈 부분(cranial portion)을 연결한다. 그리고 신경들은 큰 구멍을 통해 머리뼈를 빠져 나간다.

12번째 뇌신경은 다른 하부 뇌신경(lower cranial nerves)보다 숨뇌의 더 앞쪽(medulla more anteriorly)으로 빠져나가고 뒤통수뼈관절융기(occipital condyle)의 상부 및 전방의 대부분에 위치한 혀밑 신경과(hypoglossal canal)으로 가는 과정에서 동측 척추동맥(Vertebral artery)의 전방을 통과한다. 큰구멍에 위치한 주요 동맥 구조에는 척추동맥, 뒤아래소뇌동맥(posterior inferior cerebella artery, PICA), 앞/뒤 척추동맥(anterior and posterior spinal arteries), 목동맥(carotid arteries)의 수막가지(meningeal branches of the vertebral)가 포함된다. 척추동맥은 첫번째 경추에 도달 할 때까지 큰구멍을 통과하여 뒤고리(posterior arch)의 측면 위로 구부러지고, 뒤통수뼈관절융기에 인접한 큰구멍의 측면 가장자리 경막(dura mater)을 관통하여 진행한다[9].

3. 큰구멍수막종 수술 접근법 설명

수술 부위 접근법(approach)은 크게 네 가지 유형으로 나뉜다.

첫째, 중간 뒤통수밑 접근 방식(middle suboccipital approach)은 이는 뒤통수밑머리뼈절개(suboccipital craniotomy)을 포함하며, 엎드린 자세(prone position)로 수술을 수행한다. 여기에는 큰구멍(foramen magnum) 제거, 소뇌편도(cerebellar tonsils) 뒤당김(retraction), 아래소뇌벨레를 절제하는머리뼈절개(craniotomy)가 포함된다.

둘째, 가쪽 뒤통수밑 접근방식(lateral suboccipital approach)은 고개를 돌리면서 가쪽(lateral) 또는 바로누운자세(supine position)에서 수술을 하는 것으로, 가쪽 또는 앞쪽 숨뇌(medullary) 또는 다리뇌(pontine) 병변에 적용 가능하다.

셋째, 중간뇌(midbrain) 또는 중뇌 병변(mesencephalic lesions)에는 관자밑(subtemporal) 또는 관자밑 바위통과(subtemporal transpetrosal) 접근법이 적용된다.

넷째, 중간선 뒤통수밑(midline suboccipital) 접근법은 제 4심실(4th ventricle)에 나타나는 중간뇌 또는 중뇌 병변(mesencephalic lesions)에 적용된다.

따라서 적절한 IONM 방법을 선택하기 위해서는 수술 부위 및 수술방법에 대해 신경외과 의사와 상의하고, 수술 전에 계획을 세우고, 검사를 진행하는 것이 중요하다[10].

본 증례에서는 수술 중 갑자기 운동유발전위와 체성감각유발전위 파형의 소실이 발생하였다. 수술 중 파형이 회복되기를 기다렸으나 회복되지 않았다. 뇌종양 수술 중, IONM 검사하에 피질하 종양(subcortical tumor)를 제거할 때, 운동유발전위 파형이 완전 소실되어도, 수술 후 신경학적 검사 후 근력이 Grade 2 이상 유지되는 경우가 종종 있다. 이와 유사한 결과를 보일 가능성을 기대하고, 파형 소실에도 수술을 진행하여, 모든 종양을 제거하였다. 하지만, 수술 후 환자는 사지마비를 포함하여 삼킴장애 및 호흡기능 저하가 발생하였고, 매우 위험하고, 심각한 신경학적 장애로 이어졌다. 이는 큰구멍부위의 수술에서 운동유발전위와 체성감각유발전위의 유의미한 변화가 수술 후 임상적 예후와 매우 연관이 있음을 보여준다. 특히 큰구멍(foramen magnum)부위는 뇌줄기(brainstem)에서 척수(spinal cord)로 연결되는 부위로 주요 신경구조 및 혈관들이 위치해 있다. 또한, 수술적 조작을 하기 매우 좁은 공간이므로, IONM 검사를 보다 정교하게 적용하여, 수술을 진행해야 할 것으로 생각된다.

Ethical approval

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

Conflicts of interests

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

ORCID

Sang-ku Park, <http://orcid.org/0000-0002-0546-9014>

Byung-Euk Joo, <http://orcid.org/0000-0003-3566-1194>

References

1. Pirotte BJM, Brotchi J, DeWitte O. Management of anterolateral foramen magnum meningiomas: surgical vs conservative decision making. *Neurosurgery*. 2010;67(3):58-70.
2. Dobrowolski S, Ebner F, Lepski G, Tatagiba M. Foramen magnum meningioma: the midline suboccipital subtonsillar approach. *Clin Neurol Neurosurg*. 2016; 145:28-34.
3. MacDonald DB. Intraoperative motor evoked potential monitoring: overview and update. *J Clin Monit Comput*. 2006;20(5):347-77.
4. Park SK, Hyun SC, Lim SH, Park CW, Park JW, Kim DJ, et al. Basic techniques of intraoperative neurophysiological monitoring. *Korean J Clin Lab Sci*. 2013;45(2):77-85.
5. Fukuda M, Oishi M, Takao T, Saito A, Fujii Y. Facial nerve motor-evoked potential monitoring during skull base surgery predicts facial nerve outcome. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 2008;79(9):1066-70.
6. George B, Lot G, Boissonnet H. Meningioma of the foramen magnum: a series of 40 cases. *Surg Neurol* 1997;47(4):371-9.
7. Boulton MR, Cusimano MD. Foramen magnum meningiomas: concepts, classifications, and nuances. *Neurosurg Focus*. 2003;14(6):10.
8. Macdonald DB, Dong C, Quatrone R, Sala F, Skinner S, Soto F, et al. Recommendations of the international society of intraoperative neurophysiology for intraoperative somatosensory evoked potentials. *Clin Neurophysiol*. 2019;130(1):161-79.
9. Lim SH, Park SB, Moon DY, Kim JS, Choi YD, Park SK. Principles of intraoperative neurophysiological

- monitoring with insertion and removal of electrodes. *Korean J Clin Lab Sci.* 2019;51(4):453-61.
10. Slotty PJ, Abdulazim A, Kodama K, Javadi M, Hänggi D, Seifert V, et al. Intraoperative neurophysiological monitoring during resection of infratentorial lesions: the surgeon's view. *J Neurosurg.* 2017;126(1):281-8.