

Case Report

반측안면경련 환자의 미세혈관감압술에서 수술 중 눈깜빡연합운동 감시의 적용: 증례 보고

김준순^{1,2}, 박경석^{1,2*}

¹분당서울대학교병원 신경과

²서울대학교 의과대학 신경과학교실

The application of intraoperative blink synkinesis monitoring in microvascular decompression surgery for hemifacial spasm: a case report

Jun-Soon Kim^{1,2}, Kyung Seok Park^{1,2*}

¹Department of Neurology, Seoul National University Bundang Hospital, Seongnam, Korea

²Department of Neurology, Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

ABSTRACT

The lateral spread response (LSR) monitoring has been established as a gold standard for reflecting the adequate decompression and predicting the postoperative outcome in microvascular decompression surgery (MVD) with hemifacial spasm (HFS). Recent study revealed that intraoperative blink reflex (BR) monitoring could be a reliable prognostic predictor of surgical outcome in MVD surgery. However, there has been little report on utilizing the blink synkinesis (BS) response, which may occur abnormally in HFS patients, in MVD surgery. Here, we presented a case of effective utilization of BS monitoring comparable to LSR, which failed to generate baseline BR response.

Keywords: hemifacial spasm; microvascular decompression surgery; synkinesis

서론

반측안면경련(hemifacial spasm, HFS)은 얼굴 편측의 불수의적인 근수축을 야기하는 질환으로 주로 안면신경 기시부(root exit zone)에서의 비정상적인 안면신경-혈관 접촉으로부터 발생한다. 안면신경 운동핵의 과흥분(hyperexcitability)과 안면신경 전기연접전달(ephaptic transmission) 현상이 주된 병인으로 알려져 있으며[1,2], 미세신경 감압술(microvascular decompression, MVD)이 널리 쓰이는 수술적 치료법이다[3]. 측면전파반응(lateral spreading response, LSR)은 HFS 환자에서 관찰되는 비정상 전기생리학적 소견으로, 실제 MVD 수술에서 현재까지 가장 널리 쓰이는 수술중신경계 감시(intraoperative neurophysiologic monitoring, IONM) 방법이다. 수술 중 LSR 소실은 적절한 신경 감압의 지표로 활용되고 있으나, 수술 후 환자의 장기적인 예후와의 연

관성과 관련해서는 근거가 불충분한 상태이다[4,5]. 이에 LSR 감시 외에 활용할 수 있는 수술중 감시 기법에 대한 관심이 늘어나, 최근 눈깜빡반사(blink reflex, BR) 감시의 유용성을 발표한 연구가 있고[6], 눈깜빡연합운동(blink synkinesis, BS) 감시를 LSR과 비교한 연구도 있었다[7]. BR 감시와 BS 감시를 동시에 적용한 연구는 아직 없는데, 본 증례에서는 수술 중 BR 반응을 얻지 못한 HFS 환자에서 BS 감시를 성공적으로 적용했던 증례를 보고하고자 한다.

증례

과거 기저 질환력이 없던 46세 남자가 약 2년 전부터 발생하여 점차 강도가 세지는 왼쪽 얼굴의 떨림 및 당김 증상으로 병원을 방문하였다. 초기에는 왼쪽 눈 주변만 떨리는 느낌이었으나, 시간이 지나면서 뺨과 입 주위 근육까지 같이 당겨지고,

Received Dec 17, 2023; Revised Dec 29, 2023; Accepted Dec 29, 2023

*Corresponding author: Kyung Seok Park, Department of Neurology, Seoul National University Bundang Hospital, Seongnam 13620, Korea
Tel: +82-31-787-7469, Fax: +82-31-787-4059, E-mail: kpark78@naver.com

© 2023 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.

불수의적인 근수축이 느껴졌다고 하였다. 내원 당시 신경계 검진에서, 왼쪽 반쪽 얼굴 근육의 불수의적 수축이 관찰되는 것 외에는 특이 소견이 없었다. 뇌 MRI에서는 왼쪽 안면신경 기시부에서 왼쪽 전하소뇌동맥(anterior inferior cerebellar artery)과 척추동맥(vertebral artery) 일부의 접촉이 의심되었다(Fig. 1). 환자는 상기 소견에 대해 MVD 수술을 계획하였고, 수술 전 평가에서는 유발근전도검사서 안면신경 상하 분지 간의 LSR이 관찰되었다.

마취는 프로포폴(propofol) 3.3-4.8 $\mu\text{g/mL}$ 와 레미펜타닐(remifentanyl) 0.5-2.5 $\mu\text{g/mL}$ 를 사용하여 완전정맥마취로 시행하였고, 근이완제인 로쿠로늄(rocuronium) 40 mg을 기관삽관시에만 1회 주사하였다. IONM은 ISIS Xpert(inomed, Emmendingen, Germany) 장비를 이용해, 운동유발전위(motor evoked potentials, MEP), 체성감각유발전위검사(somatosensory evoked potential, SSEP), 뇌줄기청각유발전위검사(brainstem auditory evoked potential, BAEP), LSR, BR 및 BS 감시를 시행하였다. MEP는 경두개 전기자극(transcranial electrical stimulation) 방식으로 국제 10-20 전극 배치법에 따라 좌우 중심구 주변 C1과 C2에 위치한 전극을 통해 자극하여 양측 짧은엄지벌림근과 무지외전근에서 기록하였다(100-120 mA 자극강도, 5회 반복 펄스, 50 μs 펄스폭, 2-4 ms 자극간격). 유의미한 MEP의 경고징후(warning sign)는 MEP 진폭이 기준파형(baseline) 대비 80% 이상 감소하는 경우로 정의하였다[8]. SSEP는 양측 정중신경과 후경

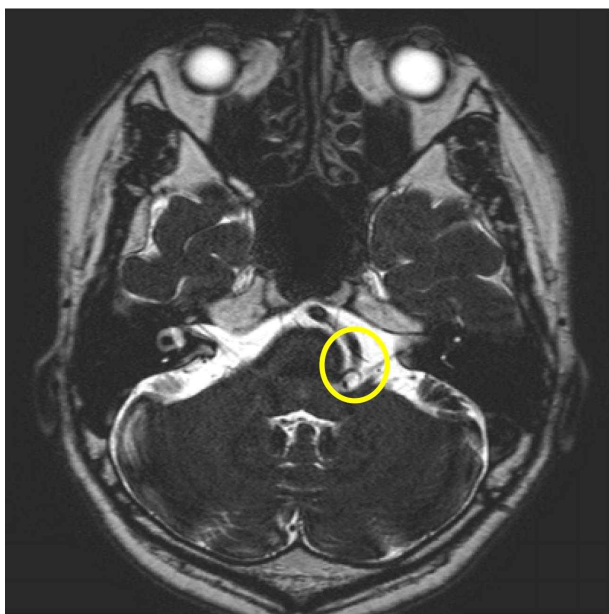


Fig. 1. Preoperative brain MRI. Preoperative brain MRI revealed a possible approximation of left anterior inferior cerebellar artery and/or vertebral artery with a left facial nerve at the root exit zone (yellow circle).

골신경을 자극하였고, Fz를 참고전극으로 하여 C3', Cz', C4'에서 기록하였다(15 mA 자극강도; 상지, 20-30 mA 자극강도; 하지, 0.3 ms 자극길이, 2.31 Hz 자극빈도). SSEP의 유의미한 경고 징후는 기준파형 대비 진폭이 50% 이상 감소하거나 잠복기가 10% 이상 늘어나는 경우로 정의하였다. BAEP는 청각유발전위 자극의 빈도는 39.7 Hz, 자극 강도는 90-95 dB으로 하고, 기록은 활동기록전극은 A1과 A2 전극, 참고기록전극을 Cz 전극으로 하였다. 파형 V의 잠복기가 기준파형 대비 1.0 ms 이상 연장되거나, 진폭이 50% 이상 감소하는 경우를 경고 징후로 정의하였다.

LSR 여부를 감시하기 위한 유발근전도 검사는 안면신경의 관자분지(temporal branch) 및 하악분지(mandibular branch)를 자극 강도 20-30 mA, 자극 기간 0.2 ms, 단일 펄스 방식으로 자극하고, 기록은 안면 신경의 지배를 받는 이마근(frontalis), 안륜근(orbicularis oculi), 구륜근(orbicularis oris), 턱근(mentalis)에서 하였다. BR 감시는 안와상신경(supraorbital nerve)을 자극해(자극강도 10 mA, 4회 반복펄스, 50 μs 펄스폭) 안륜근에서 기록을 하였고(동측 R1 반응), BS 감시는 BR 감시와 동일한 자극을 주고, 이마근/구륜근/턱근에서 반응을 기록하였다. BR 감시는 안륜근에서 반응이 기록될 경우를, BS 감시는 이마근/구륜근/턱근의 일부 혹은 전부에서 반응이 기록될 경우를 양성 반응으로 정의하였다.

수술 시작 시, 관자분지/하악분지 자극 모두에서 LSR이 관찰되었고, BR/BS 감시에서는 안륜근에서는 반응이 없는 반면, 이마근/구륜근/턱근에서 모두 반응이 나타나(잠복기 18 μs), BR은 음성, BS는 양성 반응으로 해석할 수 있었다(Fig. 2-A). 이후 지주막(arachnoid membrane)을 박리하고 난 뒤, 얼마 지나지 않아 BS 반응이 사라졌고(Fig. 2-B), 잠시 후에는 LSR도 사라졌다(Fig. 2-C). 이는 이후의 안면신경 감압 과정을 포함하여, 수술이 종료될 때까지 유지되었고, 수술 도중 나머지 MEP, SSEP, BAEP 감시상에서 유의미한 변화는 없었다. 수술 후 1일째, 1달째, 6달째, 1년째 추적 평가에서 환자의 HFS는 계속 사라진 채로 유지되었고, 수술 후 1일째 시행한 유발근전도검사서에서도 LSR은 사라진 상태였다.

고찰

HFS 환자의 MVD 수술에서 LSR 감시는 오랜 기간 동안 적절한 감압 여부를 판단하는 데 있어, 최적 표준(gold standard) 방법으로 여겨 왔지만, 수술 후 환자의 증상 완화를 예측함에 있어, 특히 장기적인 예후를 정확히 반영할 수 있는지에 대해서는 논란이 있어왔다[4]. 이에 수술 후 환자의 예후를 단기/장기적으로 더 높은 정확도로 예측할 수 있는 수술중 감시 지표의 발굴에 대한 임상적 수요가 있었고, 최근 BR 감시가

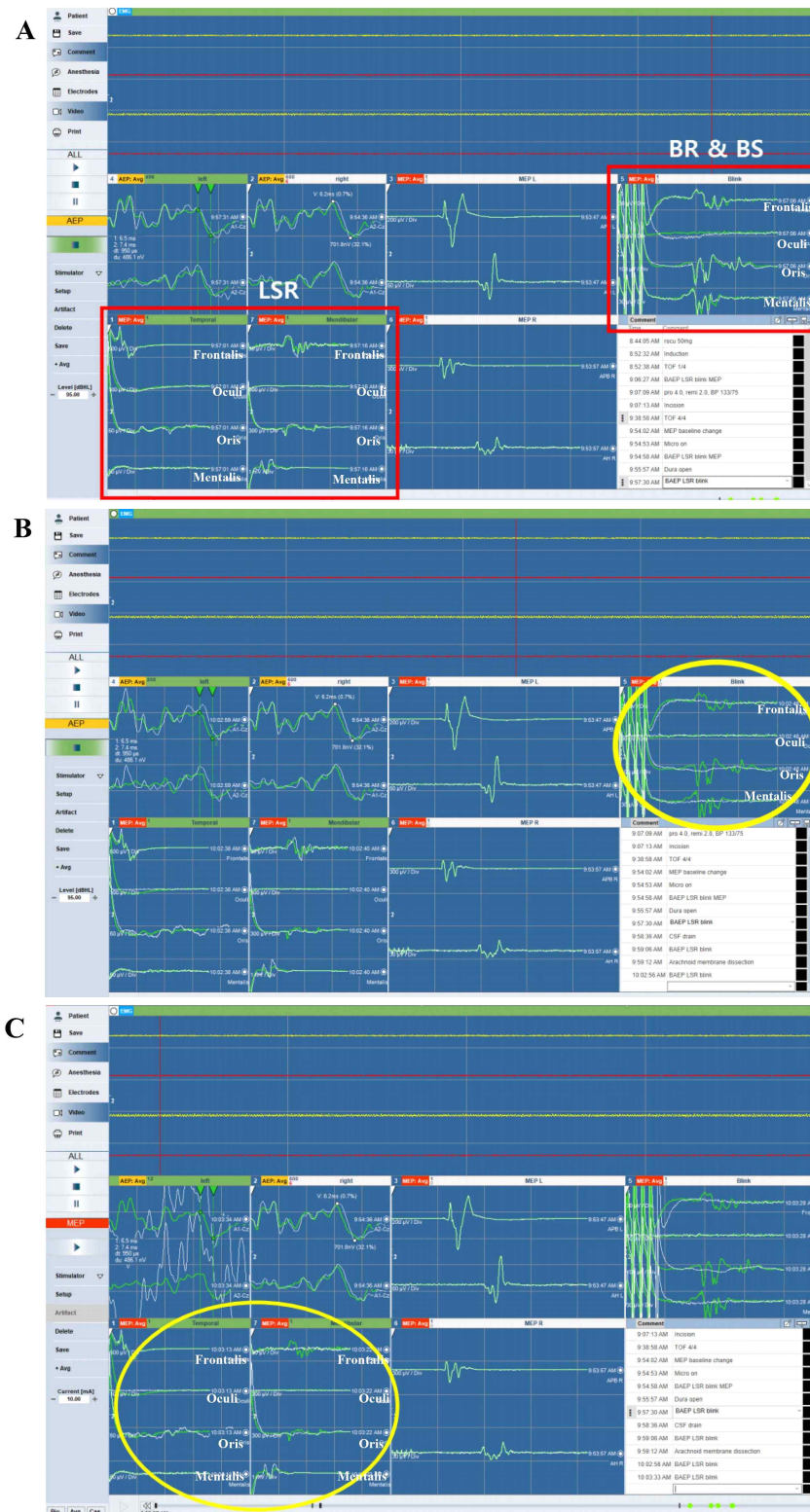


Fig. 2. The change of IONM recordings. At the baseline (A), the LSR recorded with both temporal and mandibular branch stimulation. When the supraorbital nerve was stimulated, there was no response at the orbicularis oculi muscle (negative BR response), but the muscles responses were recorded at the frontalis, orbicularis oris, and mentalis muscle (positive BS response). A few minutes after dissecting arachnoid membrane (B), the all-BS responses disappeared (yellow circle, white-colored waves indicated the most recent responses). And soon after (C), the LSR disappeared too (yellow circle, white-colored waves indicated the most recent responses). BR: blink reflex; BS: blink synkinesis; LSR: lateral spreading response.

언급되기 시작했다.

BR 반응은 사실 정상적인 생리반사(physiologic reflex)이나, 희소연접(oligosynaptic) 회로라는 특성 때문에, 일반적인 전신마취 상황에서는 수술 도중 파형을 얻기가 힘든데, Deletis 그룹이 2009년 다중펄스(multi-pulse) 자극 기법을 이용해 안면신경, 삼차신경 및 뇌줄기에 이상이 없는 환자들을 대상으로 전신마취 하에서 안정적으로 R1 반응을 기록할 수 있음을 보고하였다[9]. 이후 한 연구에서 HFS 환자에서 감압술을 시행할 때, 감압 전에 BR 반응을 기록하고, 감압 후에 BR 반응을 동일하게 얻기 위해서는 자극 강도를 높이거나, 펄스 수를 증가시켜야 함을 보여줬는데[10], 이는 안면신경핵의 활성도가 신경 감압과 함께 떨어지는 현상을 반영한 것으로 설명이 가능할 것이다. 이 원리를 이용한다면, HFS 환자의 MVD 수술에서 수술 시작 시에 BR 반응을 얻을 수 있는 자극 지표를 동일하게 유지하면서 BR 감시를 지속했을 때, 신경 감압이 성공적으로 이뤄지면, 안면신경핵의 흥분도가 떨어지고, 이에 따라 BR 반응이 사라질 수 있음을 유추할 수 있겠다.

최근 이와 같은 방법을 적용해 BR 과 LSR 감시의 유용성을 비교한 연구가 있었는데, 수술 시작 시에 LSR과 BR반응이 모두 관찰되는 41명의 MVD 환자들을 대상으로 하였다. 해당 연구에서 BR감시는 장기적인 증상 소실(수술 후 6개월 추적) 여부와의 상관분석에서 특이도 및 민감도 모두 100%를 보여, LSR 감시보다(특이도 66.7%, 민감도 78.9%) 우수한 결과를 나타냈다[6].

하지만, 이는 BR 반응 자체가 수술 시작 시에 성공적으로 얻어지는 경우에 가능한 것이고, 그렇지 않다면, BR 감시의 효용성은 떨어질 것이다. 실제로 위에서 언급했던 Deletis 그룹의 2009년 연구에서, 전신 마취 하 BR 반응을 기록했던 비율은 86.2%였고, HFS 환자들에서의 수술 중 BR 반응 발생률(generation rate)에 대한 것은 사실 아직 알려진 바가 없다. 하지만 분명, 일부 HFS 환자에서 BR 반응의 부재는 있을 수 있고, 이 경우, BR 감시를 대신할 수 있는 일환으로 BS 감시에 대해 본 저자들이 관심을 가지게 된 것이다.

정상적으로 안와상신경을 자극하게 되면, 삼차신경-안면 억제 반사(trigemino-facial inhibitory reflex)가 유도되어, 하부 안면근육의 활동을 억제하게 되는데, HFS 환자에서는 이 억제 기능이 손상된다고 알려져 있다[11]. 이에 안와상신경을 자극 시, 안륜근 외의 근육에서 근전도 반응이 나올 수 있게 되는데, 이는 결국 안면신경운동핵의 비정상적 흥분도 및 전기연접전달 여부 모두를 반영할 수 있는 현상으로 추정 가능하겠 다. BS 감시를 MVD 수술에 활용한 연구는 2019년도에 발표된 국외 연구가 현재까지 유일한 연구이다[7]. 해당 연구에서 65명의 환자들을 대상으로 했을 때, 환자들 모두 수술 1년 후 증상 소실을 경험했는데, 그 중 61명의 환자들 수술 도중에

BS 반응이 소실되었다. LSR 반응이 소실되었던 환자는 57명 이라, 저자들은 BS 감시가 LSR 감시보다 더 우수한 민감도와 정확도를 가진다고 보고하였다. 하지만, 그 차이가 통계적으로 유의한 차이는 아니어서, BS 감시가 LSR 감시보다 우월하다고 단정짓기는 힘들겠다.

HFS 발병에 있어 안면신경핵의 과흥분(중추성) 및 전기연접전달(말초성) 현상이 모두 영향을 미칠 거라고 여겨지고 있으나, 환자 모두가 동일한 비율로 안면신경핵 과흥분과 전기연접전달 현상이 발병에 기여하는 것이 아니기 때문에, 각각의 환자 안에서 상기 감시법들이 동일한 패턴(생성 및 소실 여부)을 보이기는 힘들 것이다.

본 증례에서도 BR 반응은 수술 끝까지 생성되지 않은 반면, BS 반응과 LSR은 수술 시작 때 양성소견을 보이다가, 거의 비슷한 시기에(지주막하 박리 후) 소실되었다. 그리고 BS 반응 및 LSR의 수술 중 소실과 맞물려, 수술 후 환자의 HFS 증상은 단기/장기적으로 모두 안정적으로 사라진 상태였다. 안면신경핵의 흥분도가 BR 반응 발생의 핵심적인 요소로 작용할 가능성이 높기 때문에, 본 증례 환자의 HFS 발병에 있어서는 안면신경핵의 과흥분성이라는 기전보다, 상대적으로 말초 안면신경 분지의 전기연접전달 현상이 주된 병태생리로 작용했을 것으로 조심스럽게 추정해본다.

이번 사례보고를 통해, HFS 환자의 MVD 수술에서 BS 감시 적용이 충분히 가능할 수 있음을 보여줬다고 생각되나, 향후 BS 감시의 임상적 유용성을 판단하기 위해서는 수술 시작 시, BS 파형을 어느 비율로 얻을 수 있을지, 그리고 LSR/BR 감시와 비교해(혹은 조합 시), 수술 후 단기/장기적 예후를 얼마나 정확히 예측할 수 있을지에 대한 비교분석 연구가 이뤄져야 할 것이다.

결론

반측안면경련 환자에서의 미세혈관감압술 수술중신경계감사에서 기존의 표준 감시요법으로 활용되어 왔던 LSR 감시 외에도, BR 감시, 혹은 본 증례에서의 BS 감시가 적절한 신경 감압 여부를 판단하고, 나아가 수술 후 환자의 임상적 예후를 예측하는 지표로 활용될 수 있는 가능성을 가질 수 있다고 생각된다. BS 감시가 기존의 감시법을 대체할 수 있을지, 또는 상호보완적 역할을 가질 수 있을지는 향후 더 많은 환자군 연구 분석을 통해 밝혀야 하는 부분일 것이다.

Ethical approval

Not applicable.

Conflicts of Interest

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

ORCID

Jun-Soon Kim, <https://orcid.org/0000-0001-7685-2793>

Kyung Seok Park, <https://orcid.org/0000-0003-1553-5932>

References

1. Møller AR, Jannetta PJ. On the origin of synkinesis in hemifacial spasm: results of intracranial recordings. *J Neurosurg.* 1984;61(3):569-76.
2. Møller AR. Hemifacial spasm: ephaptic transmission or hyperexcitability of the facial motor nucleus? *Exp Neurol.* 1987;98(1):110-9.
3. Sindou M, Mercier P. Microvascular decompression for hemifacial spasm: outcome on spasm and complications. A review. *Neurochirurgie.* 2018;64(2):106-16.
4. Lee SH, Park BJ, Shin HS, Park CK, Rhee BA, Lim YJ. Prognostic ability of intraoperative electromyographic monitoring during microvascular decompression for hemifacial spasm to predict lateral spread response outcome. *J Neurosurg.* 2017;126(2):391-6.
5. Joo WI, Lee KJ, Park HK, Chough CK, Rha HK. Prognostic value of intra-operative lateral spread response monitoring during microvascular decompression in patients with hemifacial spasm. *J Clin Neurosci.* 2008;15(12):1335-9.
6. Choi J, Yang S, Kim JS, Han JH, Park KS. Predictive value of intraoperative blink reflex monitoring for surgical outcome during microvascular decompression for hemifacial spasm. *Clin Neurophysiol.* 2020;131(9):2268-75.
7. Hsu PC, Yang TF, Hsu SPC, Yen YS, Lin CF, Tsai YY, et al. Blink synkinesis monitoring during microvascular decompression for hemifacial spasm. *J Chin Med Assoc.* 2019;82(6):519-23.
8. MacDonald DB. Overview on criteria for MEP monitoring. *J Clin Neurophysiol.* 2017;34(1):4-11.
9. Deletis V, Urriza J, Ulkatan S, Fernandez-Conejero I, Lesser J, Misita D. The feasibility of recording blink reflexes under general anesthesia. *Muscle Nerve.* 2009;39(5):642-6.
10. Fernández-Conejero I, Ulkatan S, Sen C, Deletis V. Intra-operative neurophysiology during microvascular decompression for hemifacial spasm. *Clin Neurophysiol.* 2012;123(1):78-83.
11. Pavesi G, Cattaneo L, Chierici E, Mancina D. Trigemino-facial inhibitory reflexes in idiopathic hemifacial spasm. *Mov Disord.* 2003;18(5):587-92.