

Case Report

엉치뼈 척삭종의 수술후 방광기능에 대한 수술중 구해면체근반사 감시의 유용성

이효정¹, 박진영², 정석영², 김다운², 박윤길^{2*}

¹분당제생병원 재활의학과

²연세대학교 의과대학 재활의학교실 및 희귀난치성 신경근육병 재활연구소

Usefulness of intraoperative bulbocavernosus reflex monitoring for post-operative bladder function in sacral chordoma surgery

Hyo Jeong Lee¹, Jinyoung Park², Seok Young Chung², Dawoon Kim², Yoon Ghil Park^{2*}

¹Department of Rehabilitation Medicine, Bundang Jesaeng General Hospital, Seongnam, Korea

²Department of Rehabilitation Medicine, Gangnam Severance Hospital, Rehabilitation Institute of Neuromuscular Disease, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

ABSTRACT

Sacral chordoma is at risk for postoperative wound infection, massive bleeding, lumbosacral instability and bladder and bowel dysfunction. The neurophysiologic changes of intraoperative bulbocavernosus reflex (BCR) monitoring reflect a damage to the bladder function. A 52-year-old woman visited neurosurgery clinic with severe sacral pain. Other than the sensation of residual urine, there were no neurological abnormalities. Spine magnetic resonance imaging demonstrated a 39 mm-sized chordoma in S4-5. Surgical removal of the tumor at S2-4 sacral and coccyx level was done under intraoperative neurophysiological monitoring including BCR. The baseline BCR was successfully recorded bilaterally. However, bilateral BCR was disappeared during tumor removal and never recovered at the end of the surgery. Urinary retention occurred after surgery and urodynamic study revealed the evidences of neurogenic bladder. Also, she had timed suppository for constipation. The intraoperative BCR monitoring may be a useful tool to predict postoperative bladder function in patients with sacral chordoma.

Keywords: chordoma; intraoperative neurophysiological monitoring; reflex, abnormal

서론

척삭종은 원발성 골종양 중 5% 미만으로 드물게 발생하는 종양으로, 척삭잔유조직으로부터 발생하여 대부분 천추(40%~50%)에서 발견되며, 두개골(35%~40%), 척추체(15%~20%) 순으로 발견된다[1]. 병리조직학적으로 양성 종양이기는 하나, 침습적이고 전이가능성을 나타내어 50~70세에 발견하게 된다[1,2]. 천추의 통증이 가장 흔한 증상으로, 자세 변화와 감각 저하를 동반한다. 치료로는 후방접근으로 광범위한 수술적 절제술을 시행하는 것이 가장 효과적이고, 동반하여 방사선치료, 약물치료를 병행한다[1,3]. 국소재발의 위험성을 줄이기 위해 일괄절제술을 시행하기 때문에 창상열개, 신경인성 방광 및 장, 다량 출혈과 엉치골반의 불안정성과 같은 합병증이 생긴다[4]. 특히 병변이 천추 부위를 포함한 경우 배뇨 및 배변장애가

발생하기 쉽다.

수술후 배뇨 및 배변장애 합병증을 막기 위하여 1997년부터 수술중 구해면체근반사(bulbocavernosus reflex, BCR) 감시가 시작되었고, 사례들이 증가하고 있는 추세이다[4]. 천추의 척삭종 수술 시 수술중 신경계 감시의 증례 보고된 적은 있으나[5], BCR 감시의 유용성에 대한 보고는 없었다.

이에 드물게 발생하는 천추의 척삭종 제거술에서 술 후 배뇨장애의 발생을 예측하는 데 수술중 BCR 감시가 유용하게 활용되었던 증례를 보고하고자 한다.

증례

52세 여자 환자가 내원 1년 전부터 발생한 꼬리뼈 통증을 주소로 내원하였다. 신경학적 검진 상 하지 근력의 손상은 없

Received March 17, 2021; Revised May 13, 2021; Accepted May 13, 2021

*Corresponding author: Yoon Ghil Park, Department of Rehabilitation Medicine, Gangnam Severance Hospital, Rehabilitation Institute of Neuromuscular Disease, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Tel: +82-2-2019-3493, Fax: +82-2-2019-4881, E-mail: DRTL@yuhs.ac

© 2021 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.

었고, 배뇨 시 시원하지 않은 느낌이 있었지만, 잔뇨, 급박뇨는 증상은 없었다. 이학적 검사 상, BCR이 양측에서 관찰되었으며, 항문주의부의 감각과 심부항문압에 이상소견은 없었다. 경과관찰하던 중, 수면을 이루기 힘들만큼 통증이 심해져서 시행한 요추 자기공명영상검사서 천추 4번, 5번 위치에 39 mm 크기의 척삭종이 관찰되어(Fig. 1), 척추신경외과에서 상기 병변에 대해 종양을 포함하여 천추 2-5번의 절제술 및 미골 절제술을 시행하였다. 수술은 복와위 자세에서 후방접근술로 진행되었고, 마취는 프로포폴(propofol)과 레미펜타닐(remifentanyl)을 사용하여 완전정맥마취(total intravenous anesthesia)로 시행하였다. 기관삽관을 위한 근이완제로는 로쿠로늄(rocuronium) 50 mg을 1회 정맥주사하였고, 이후 수술 종료 시까지 투여하지 않았다. 수술중신경계감시는 Cascade[®] IONM system(Cadwell Industries, Kennewick, WA, USA) 장비를 이용해, 하지 운동유발전위(motor evoked potentials, MEPs), 음부 체성감각유발전위(pudendal somatosensory evoked potentials, pudendal, SEPs), 자발근전도(free-running electromyography), 그리고 BCR 감시를 시행하였다. MEP는 경두개 전기자극(transcranial electrical stimulation)방식으로 international 10-20 뇌파검사체계에

따라 C1-C2 반구사이 몽타주(interhemispheric montage)를 통해 자극하여 양측 앞정강근(tibialis anterior), 무지외전근(abductor hallucis)에서 기록하였다(300-400 V 자극 강도, 0.05 ms 자극길이, 6회 반복 펄스, 자극 간격 3 ms). 신경생리학적 경보(alarm) 신호는 MEP의 진폭이 기준파형(baseline)의 50% 이상 감소하는 경우로 정의하였다. Pudendal SEP는 음핵을 자극하여 Fz를 참고전극으로 하여, Cz'에서 기록하였다(20-25 mA 자극강도, 500회, 0.4 ms 자극기간, 4.3 Hz 자극빈도). Pudendal SEP에 대한 경보 신호는 기준파형에 비해 진폭이 50% 이상 감소하거나 잠복기가 10% 이상 연장되는 경우로 정의하였다. 자발근전도는 양측 항문조임근(anal sphincter), 앞정강근 및 무지외전근에서 기록하였으며, 지속적이고 반복적인 신경긴장성(neurotonic) 신호가 관찰되는 경우 임상적 의미가 있는 것으로 보였다. BCR은 음핵 및 대음순에 침전극을 위치시킨 후 음부신경(pudendal nerve)을 자극하여 양측 외항문조임근에서 파형을 기록하였다(30-40 mA 자극강도, 0.5 ms 자극길이). BCR에 대한 경보 기준은 일측 또는 양측에서 BCR의 소실로 정의하였다.

수술 시작 시 양측에서 모두 MEP, pudendal SEP, BCR이 성공적으로 기록되었고, S3-4 level의 혈관 임시결찰(tempo-



Fig. 1. Sacral chordoma in magnetic resonance image. (A) A T2-weighted lumbar spine magnetic resonance image revealed a 39 mm-sized enhanced tumor lesion at S4-S5 levels, suggestive of chordoma in sagittal view. (B) The axial view showed a destruction of the appendiceal osseous mass with an irregular lobulated shape.

rary clipping) 이후에도 기록되었으나(Fig. 2-A, Fig. 3-A), 종양 제거 시작 20분 후부터 양측의 BCR이 갑자기 소실되었고(Fig. 3-B), pudendal SEP의 진폭이 50% 이상 감소하였다(Fig. 2-B). 이에 대해 즉시 집도의에게 알렸다. 당시 환자의 활력 징후에는 특별한 변화가 없었으며, 그 외 마취 심도의 변화 및 기계적 문제에도 이상은 없었다. 이후 BCR의 파형 소실이 지속되어서 수술을 잠시 멈추기도 하였다. 동일한 시점에 다시 BCR과 pudendal SEP에서 50% 이상 감소된 진폭 파형이 기록되었으나(Fig. 2-B, Fig. 3-C), pudendal SEP는 정상적으로 회복하여 종료하였고(Fig. 2-C), BCR은 양측의 파형이 다시 소실된 후 회복되지 못한 채 종료되었다(Fig. 3-D). 수술시간은 총 300분, 총 혈액소실량은 400 mL이었고, 그 외 양측의 MEP, free running EMG에서는 수술 중 이상이 확인되지 않았다.

수술후 환자의 하지 근력과 감각은 수술 전 상태로 유지되었으며, 심한 배뇨 및 배변장애가 발생하였다. 환자는 수술후 도뇨관 제거를 하였으나 자발 배뇨가 되지 않아 도뇨관 삽입 상태로 지내다가 1개월 되는 시점에 시행한 요역동학검사(urodynamic study)에서는 저장기(storage phase)에 낮은 유순도(compliance)와 배뇨시기(voiding phase)에 낮은 유속을 나타내며, 신경인성 방광 소견을 보여, 청결간헐도뇨(clean intermittent catheterization)를 이용해야만 했다. 또한 자발 배변이 이루어지지 않아 일정 간격으로 좌약을 넣어서 배변을 하였다. 수술 1개월 후부터 2개월간 방사선 치료를 시행 받았고, 마지막 경과추시한 7개월 시점까지 청결간헐도

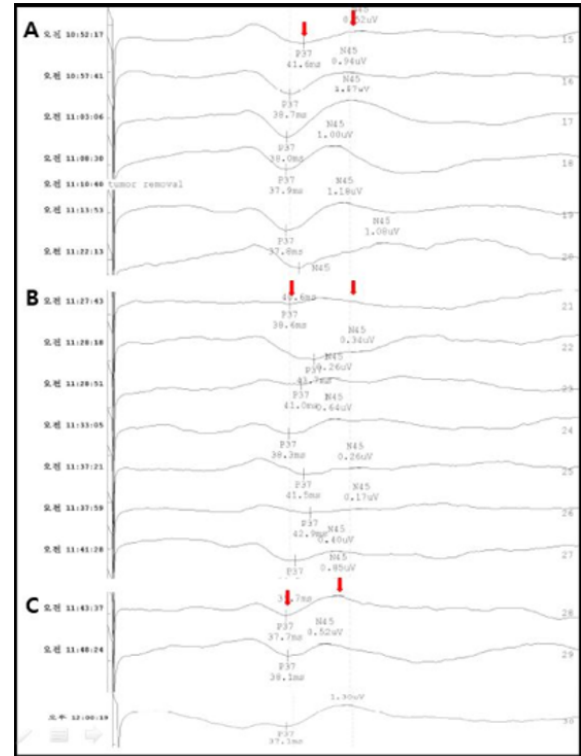


Fig. 2. Intraoperative pudendal somatosensory evoked potentials (SEP) monitoring. (A) The baseline pudendal SEP was consistently recorded. (B) The pudendal SEP stack data showing significant decrease in amplitude. (C) After the pudendal SEP showed a decrease in amplitude of below 50% at 11:43, the pudendal SEP was completely recovered at the end of the surgery. Red arrow: recorded P37 and N45 waveform of pudendal SEP.

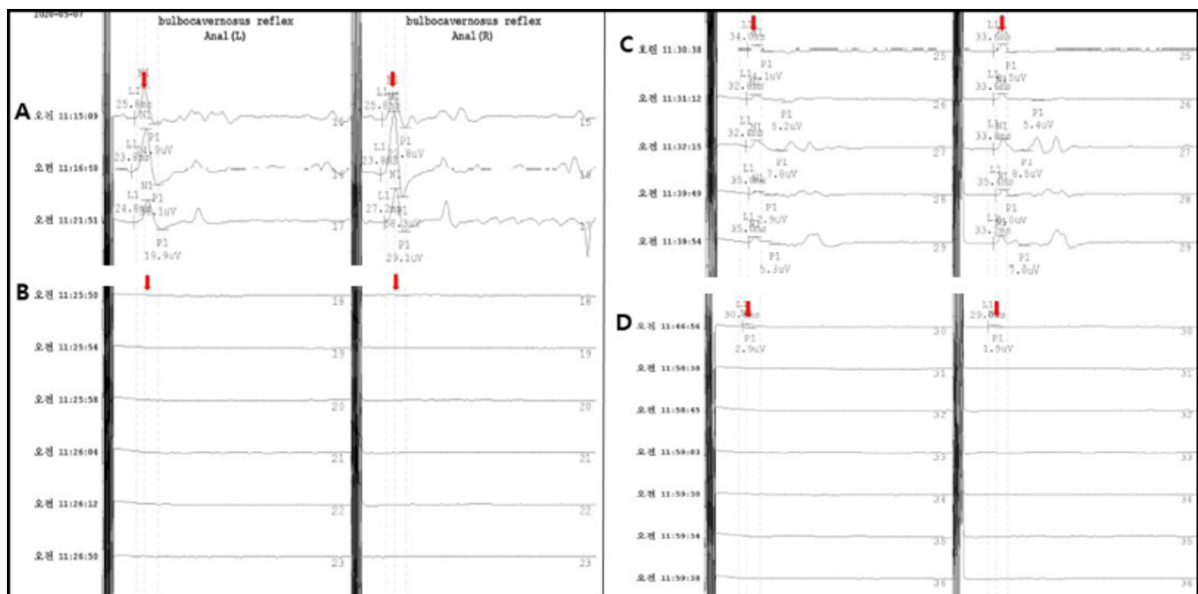


Fig. 3. Intraoperative bulbocavernosus reflex (BCR) monitoring. (A) The baseline BCR was consistently recorded bilaterally. (B) The BCR disappeared abruptly on both sides during the tumor removal. (C) The bilateral BCR showed a decrease in amplitude of more than 50%. (D) At the end of the surgery, the bilateral BCR completely disappeared and did not recover at the end of the surgery. Red arrow: recorded BCR waveform.

노를 시행하는 것으로 확인하였다.

고찰

척삭증은 원발성 골종양 중 5% 미만으로 낮은 유병율을 보이나, 천추에 대부분 발생하여 치료적인 절제술을 받게 될 경우, 신경학적 결손으로 인한 배뇨 및 배변장애가 발생할 수 있다[6]. 이전 연구에 따르면, 수술 시 천추 신경근들 중에서 제3천추신경근의 일측을 보존한 경우에는 대부분에서 배뇨, 배변 조절이 가능하고, 제2천추신경근의 양측을 보존하면 부분적으로 50%에서 회복을 기대, 제1천추신경근만을 보존한 경우에는 기능회복을 기대하기 어려운 것으로 알려져 있다[7]. 본 환자의 경우, 영상학적 검사상 천추 4, 5번 병변으로 확인되었으나, 광범위한 수술적 절제술을 위해 천추 2-5번의 절제술 및 미골 절제술을 함께 시행하게 되어, 기능회복을 기대하기에 어려운 상태였다.

수술중신경계감시가 척추 수술 분야에서 복합감시 기법으로 수술의 편의 및 효율성, 안정성을 높이는데 있어 유용한 수단이 되는 것은 명백한 사실이다. SEP, MEP 두 가지 감시법을 동시에 사용하고, 이에 추가로 감시법을 이용하는 경우에 대한 연구들이 늘어나고 있다. BCR 감시는 비노 생식 반사 회로의 전반을 평가할 수 있는 것으로서, 척수원추, 말총, 영치신경얼기 및 음부신경을 포함한 부위의 수술에서 활용될 수 있는 검사법이다. 세 해부학적 구조(감각, 운동섬유 및 척추 회색질)의 통합적인 기능을 한 번에 보여주기 때문에 장점일 수 있지만, 반대로 민감하고 임상적 소실 시 명백한 관련성을 찾기 어렵다 [5].

본 환자의 경우, MEP, 자발근전도 상에서는 정상이었으나, pudental SEP에서는 50% 이상의 진폭 저하 소견이 있었지만 회복되었고, BCR 감시에서는 50% 이상의 진폭 저하가 발생하고, 수술 종료 시까지 회복되지 않았다. 이전 증례 연구에서는 영치 및 음부신경얼기의 신경계감시를 모니터링했고, 특이소견 없이 환자의 합병증 또한 호전된 예후를 보여주었다 [6]. 천추부 유잉육종의 일괄절제술에서 일측의 후경골 SEP 및 BCR의 유효한 진폭 감소를 보였으나, 반대측의 경골 SEP 및 BCR이 안정적으로 유지되면서, 수술 후 1년째 경과 시 배뇨 및 배변장애는 없었다[8].

본 연구와 같이 척삭증 치료에서 수술의 범위 및 신경학적 손상 예상범위를 고려하여 BCR 감시를 시행하는 것이 수술 후 환자의 배뇨 관련 기능의 예후와 유효한 관련성을 보인다는 선행연구는 없었다. 음부신경의 자극을 통해 천추 신경 2-4의 전체적인 신경 경로를 유기적으로 평가할 수 있는 유용한 수단이나 실제 BCR 감시 결과와 수술 후 배뇨관련 기능의 예측 여부에 대해서는 최근에서야 이루어지고 있다. 배뇨 기능을 받

영하는 방광과 요도 평활근은 자율신경계의 조절을 받고, BCR의 외항문조임근은 체성신경계의 조절을 받으므로, BCR 감시가 직접적으로 배뇨 기능을 평가하는 것은 아니다. 그러나 척수견인증 환자들을 대상으로 한 이전 연구에서 수술중 BCR의 변화는 배뇨 기능을 예측할 수 있음을 제시하였고[9], 본 연구 또한 병변 부위 혹은 그 위 신경근 수준에서 자율신경계와 체성신경계가 함께 주행하였을 것으로 제한한다. 소아 환자들을 대상으로 한 척수견인증 제거술 연구에서 BCR의 완전 소실을 경고 기준으로 삼았을 때, 6개월 후 배뇨 기능의 예측에 88.5%의 특이도를 나타내어 유용성을 제시하였고[9], 요천추의 척추종양을 가진 성인들을 대상으로 한 연구에서는 수술중 BCR이 사라진 환자들은 수술 6개월 후에도 배뇨장애를 보여, 수술 중 BCR 감시가 배뇨기능을 예측하는 데에 신뢰할 수 있는 인자로 최근 국내 연구진에서 밝혔다[10].

본 연구 결과인 pudental SEP의 진폭 저하 후 회복 및 BCR 감시에서 진폭 저하 지속은 구해면체근반사궁 또는 운동신경로의 손상을 시사할 것인데, 이에 외항문조임근에서의 MEP를 동시에 감시하였다면 운동신경로 해석에 더 도움이 되었을 것으로 사료된다.

결론적으로 천추의 척삭증 치료법에서의 수술중신경계감시 방법 중 BCR 감시는 수술 후 배뇨 기능을 예측하는데 유용할 수 있으며, 궁극적으로 환자의 수술 후 신경학적 예후 향상에 도움이 될 것으로 기대되는 바이다. 향후 병변의 위치에 따른 예후 분석을 위해 더 많은 증례들을 바탕으로 한 추가적인 연구가 필요할 것이다.

Ethical approval

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

Conflicts of interest

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

ORCID

Hyo Jeong Lee, <https://orcid.org/0000-0001-8300-3407>
 Jinyoung Park, <https://orcid.org/0000-0003-4042-9779>
 Seok Young Chung, <https://orcid.org/0000-0003-1484-6771>
 Dawoon Kim, <https://orcid.org/0000-0003-4502-8149>
 Yoon Ghil Park, <https://orcid.org/0000-0001-9054-5300>

References

1. Xu Q, Gu H, Liu X, Liu H, Zhou Y, Chen G, et al. Giant sacrococcygeal chordoma: a case report. *Medicine*. 2018;97(51):e13748.
2. Stacchiotti S, Casali PG, Lo Vullo S, Mariani L, Palassini E, Mercuri M, et al. Chordoma of the mobile spine and sacrum: a retrospective analysis of a series of patients surgically treated at two referral centers. *Ann Surg Oncol*. 2010;17(1):211-9.
3. Clarke MJ, Dasenbrock H, Bydon A, Sciubba DM, McGirt MJ, Hsieh PC, et al. Posterior-only approach for en bloc sacrectomy: clinical outcomes in 36 consecutive patients. *Neurosurgery*. 2012;71(2):357-64.
4. Skinner SA, Vodusek DB. Intraoperative recording of the bulbocavernosus reflex. *J Clin Neurophysiol*. 2014;31(4):313-22.
5. Castiglione M, Conti C, Frondizi D, Cottini E, Cochetti G, Ciampini A, et al. A combined one-staged robot-assisted sacral chordoma resection. *World Neurosurg*. 2020;141:210-4.
6. Schwab JH, Healey JH, Rose P, Casas-Ganem J, Boland PJ. The surgical management of sacral chordomas. *Spine*. 2009;34(24):2700-4.
7. Cho SH, Lee SY, Jeon DG, Song WS, Kong CB, Lee JD, et al. Oncologic outcome of sacral chordoma. *J Korean Bone Joint Tumor Soc*. 2012;18:66-71.
8. Jahangiri FR, Al Eissa S, Jahangiri AF, Al-Habib A. Intraoperative neurophysiological monitoring during sacrectomy procedures. *Neurodiagn J*. 2013;53(4):312-22.
9. Cha S, Wang KC, Park K, Shin HI, Lee JY, Chong S, et al. Predictive value of intraoperative bulbocavernosus reflex during untethering surgery for postoperative voiding function. *Clin Neurophysiol*. 2018;129(12):2594-601.
10. Choi J, Kim JS, Hyun SJ, Kim KJ, Park KS. Efficacy of intraoperative bulbocavernosus reflex monitoring for the prediction of postoperative voiding function in adult patients with lumbosacral spinal tumor. *J Clin Monit Comput*. 2021:1-7.