



CASE REPORT

부비동염으로 인한 경막밑축농: 뇌전증지속상태, 안와첨단증후군을 동반한 유사 군발두통 증례 보고

노진우^{a,b} 김지영^{a,b,c}부산대학교병원 신경과^a, 의생명연구원^b, 부산대학교 의과대학 신경과학교실^c

Subdural Empyema Secondary to Sinusitis: Presenting with Cluster-like Headache, Status Epilepticus, and Orbital Apex Syndrome

Jinwoo No, MD^{a,b}, Jiyoung Kim, MD, PhD^{a,b,c}Department of Neurology, Pusan National University Hospital, Busan, Korea^aBioMedical Research Institute, Pusan National University Hospital, Busan, Korea^bDepartment of Neurology, Pusan National University School of Medicine, Busan, Korea^c**Address for correspondence**

Jiyoung Kim, MD, PhD

Department of Neurology, Pusan National University School of Medicine, 179 Gudeok-ro, Seo-gu, Busan 49241, Korea
 Tel: +82-51-240-7311
 Fax: +82-51-254-7317
 E-mail: Bijoukim78@gmail.com

Received May 2, 2024**Revised** May 26, 2024**Accepted** May 27, 2024

A 67-year-old man suffered cluster-like headache for 8 months. He underwent endoscopic sinus surgery 2 months prior to the onset of headache. The patient experienced status epilepticus 7 months after the onset of cluster-like headache, and 8 months after its onset, orbital apex syndrome developed. Brain magnetic resonance imaging (MRI) showed subdural empyema. This case emphasizes the association between subdural empyema caused by sinusitis and the potential manifestation of various neurological symptoms, including cluster-like headache, status epilepticus, and orbital apex syndrome.

J Korean Neurol Assoc 42(3):262-265, 2024**Key Words:** Status epilepticus, Cluster headache, Sinusitis

군발두통은 삼차자율신경두통으로 갑자기 발생한 극심한 통증이 일측성 안와, 안와 상부 또는 측두부에 발생하는 것을 말한다. 증상은 한 번 발생하면 15분에서 3시간 정도 지속되고 통증이 매우 극심하여 동요하거나 안절부절못하는 경우가 많다.¹ 보통 이틀에 한 번에서 하루에 8회 정도 두통이 발생한다. 군발두통은 통증 외에도 결막부종, 눈물, 콧물, 코 막힘, 땀, 축동, 안검하수, 안검부종을 동반한다. 군발두통 발생과 관련된 해부학적 구조물은 시상하부, 삼차신경혈관, 자율신경이 있는 것으로 알려져 있으며 국제 두통질환 분류에서는 일차두통 중 하나인 삼차자율신경두통의 아형으로 분류된다.² 그러나 군발두통은 드문 일차두통으로 이차두통에 대한 감별 진단이 필요하다.^{3,4} 내경동맥박리, 뇌동맥류와 같은 혈관 병터에

의해 이차군발두통 증상이 나타나는 경우가 가장 흔하며 다음으로는 뇌하수체 종양, 수막종과 같은 종양성 병터, 안와염 증과 같은 염증 병터 등이 원인이 되어 군발두통 양상의 증상이 발생할 수 있다. 특히 두개 내 혈관, 종양, 염증 병터 외에도 부비동염과 같은 두개 외 병터에서도 유사한 증상이 나타난다.⁵ 따라서 저자들은 환자가 보였던 증상을 바탕으로 초기 군발두통으로 생각하였으나 뇌전증지속상태, 안와첨단증후군 (orbital apex syndrome)을 포함한 다양한 신경학적 증상을 보였던 증례를 통하여 그 원인과 군발두통 진단 시 주의할 점에 대하여 알아보고자 한다.

증례

67세 남자가 8개월 전부터 시작된 극심한 두통으로 왔다. 두통은 왼쪽 측두부, 왼쪽 눈 주위에 육신거리는 양상으로 발생하였으며 낮에도 증상이 있었으나 주로 야간에 발생하였다. 한 번 발생하면 수 분에서 수십 분간 지속되었고 두통의 강도는 가장 아플 때 시각 아날로그 척도(visual analog scale)로 8 정도였다. 하루에 평균 5번 정도 통증이 발생하였으며 이런 양상의 두통이 한 번 시작되면 일주일 정도 반복되었다. 일주일 정도 지속되는 삽화 기간을 갖는 두통이 본원에 내원할 때까지 8개월간 총 5회 정도 있었다. 두통은 좌측 안와 측두부 주변에서 발생하였고 이와 함께 좌측 눈의 충혈, 동측의 코에서 콧물도 동반되었다. 심한 편측두통과 동측 눈의 충혈, 콧물 등의 자율신경계 증상이 있어 타 병원에서 군발두통 진단을 받고 급성기 통증 조절을 위하여 비스테로이드성 소염진통제, 트립탄제 및 산소 치료를 하였다. 베라파밀, 스테로이드제를 포함한 예방 치료는 받지 않았다. 급성기 약물 및 산소 치료 시 통증은 일부 완화되었으나 두통은 뚜렷한 호전 없이 빈도가 점점 심해져 본원으로 왔다. 과거력으로는 고혈압, 당뇨가 있어 약제 복용 중이었으며 전원 10개월 전 부비동염 진단을 받아 부비동 내시경 수술을 3차례 받았고 첫 부비동 내시경 수술 2달 뒤부터 군발두통 양상의 통증이 발생하였다. 또

한 전원 한 달 전에는 의식 회복 없이 반복적인 전신발작을 보인 뇌전증지속상태가 발생하여 입원 치료를 하였다(Fig. 1). 당시 실시한 뇌자기공명영상 검사의 확산강조영상에서 좌측 전두부에 고신호강도가 확인되어 뇌전증지속상태의 원인으로 뇌경색을 의심하였다. 또한 좌측 대뇌반구를 따라서 경막밀축농도 의심되었으나 당시에는 명확한 변화가 아니었다(Fig. 2). 이후 조절되지 않는 두통으로 전원되었으며 전원 시에도 군발두통 증상이 동일하게 반복되었고 왼쪽 눈의 부종, 발적이 있었다. 두통에 대한 평가를 위하여 실시한 신경학적 진찰에서 새로운 증상이 확인되었다. 좌안에서 시력 저하, 동공반사 저하, 안구운동장애 그리고 눈꺼풀처짐이 보여 안와첨단증후군을 의심할 수 있었다.

안와첨단증후군 진단을 위해 뇌자기공명영상을 시행하였다. 검사에서 안와첨단에 조영증강 병터, 경막밀축농이 확인되었다(Fig. 3-A-D). 해당 병터의 치료를 위하여 경험적 항생제로 세페팜, 반코마이신, 메트로니다졸을 정맥 주사하였다. 또한 최근 10개월간 부비동 내시경 수술을 3차례 받은 과거력이 있어 안와첨단증후군 및 두부경막밀축농의 원인으로 부비동염을 고려해 병원체 확인과 배액을 위해 내시경적 부비동 수술을 시행하였다. 배액 후 확보한 검체에서 균사(hypha)는 관찰되었으나 특정 병원체가 확인되지는 않았다. 3개월 항생제 사용 이후 두통, 안경하수 및 안구운동 제한은 완전 소실되었

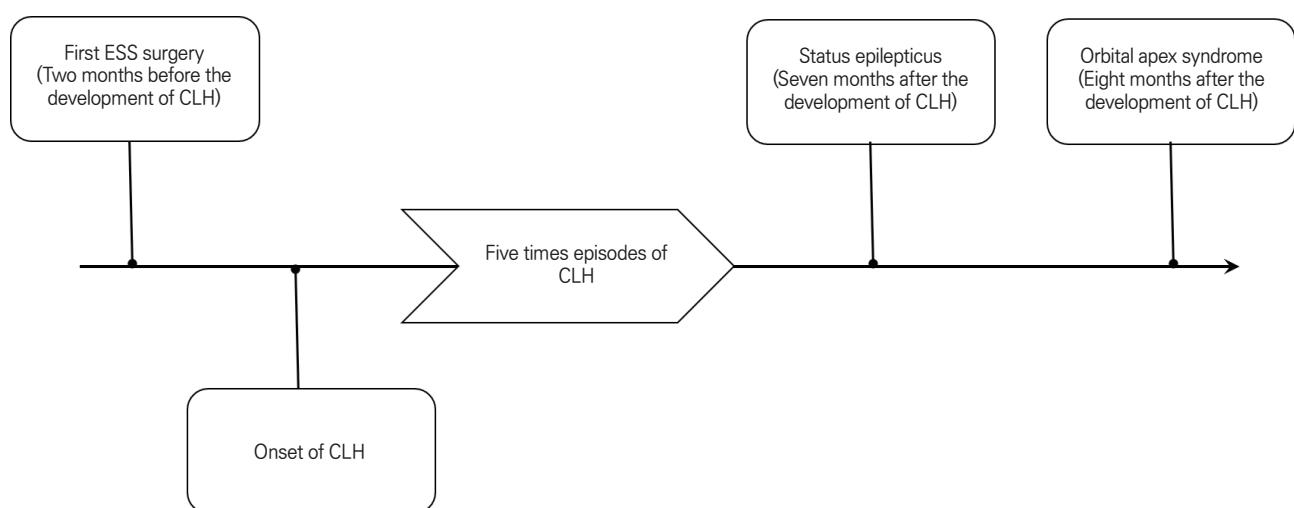


Figure 1. Timeline of patient's symptoms and episodes. The patient underwent first ESS 2 months before the onset of CLH, developed a status epilepticus 7 months after the onset of CLH, and presented orbital apex syndrome 8 months after the onset of CLH. The patient underwent three times ESS for 10 months. ESS; endoscopic sinus surgery, CLH; cluster-like headache.

으나 시력 저하는 남았다. 치료 이후 실시한 뇌자기공명영상 검사에서 안와첨단의 조영증강 병터는 지속적으로 관찰되었으나 경막밑축농은 소실되었다(Fig. 3-E, F). 이후 6개월간의

추적 진료 시 두통, 경련의 재발은 없었고 안와첨단증후군과 관련한 증상도 새롭게 발생하지는 않았다.

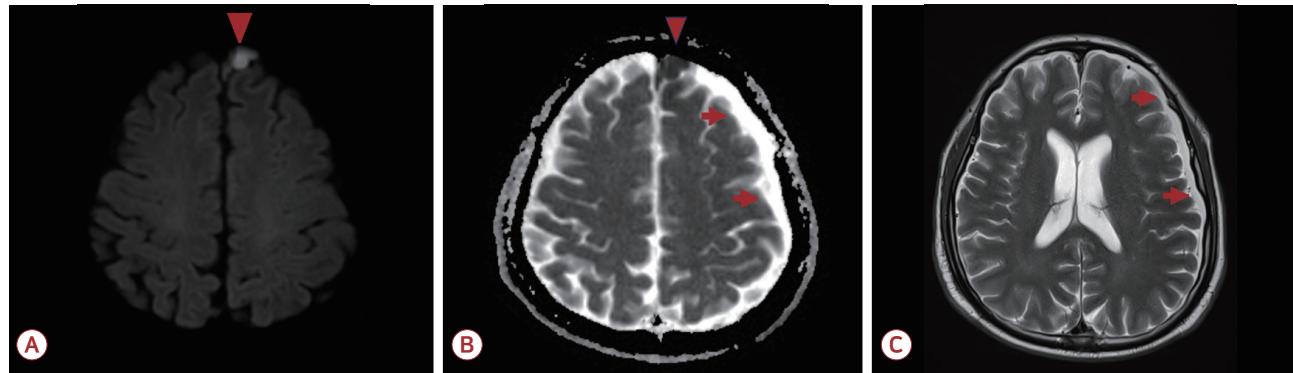


Figure 2. Brain MRI conducted to evaluate the cause of status epilepticus. (A) In the DWI and (B) the ADC maps, hyperintense signals (arrowhead) and hypointense signals (arrowhead) were observed. At that time, stroke was considered a potential cause of the status epilepticus. (B) Furthermore, hyperintense signals (arrows) were suspected along the left cerebral hemisphere on ADC maps and (C) T2-weighted image. MRI; magnetic resonance imaging, DWI; diffusion-weighted image, ADC; apparent diffusion coefficient.

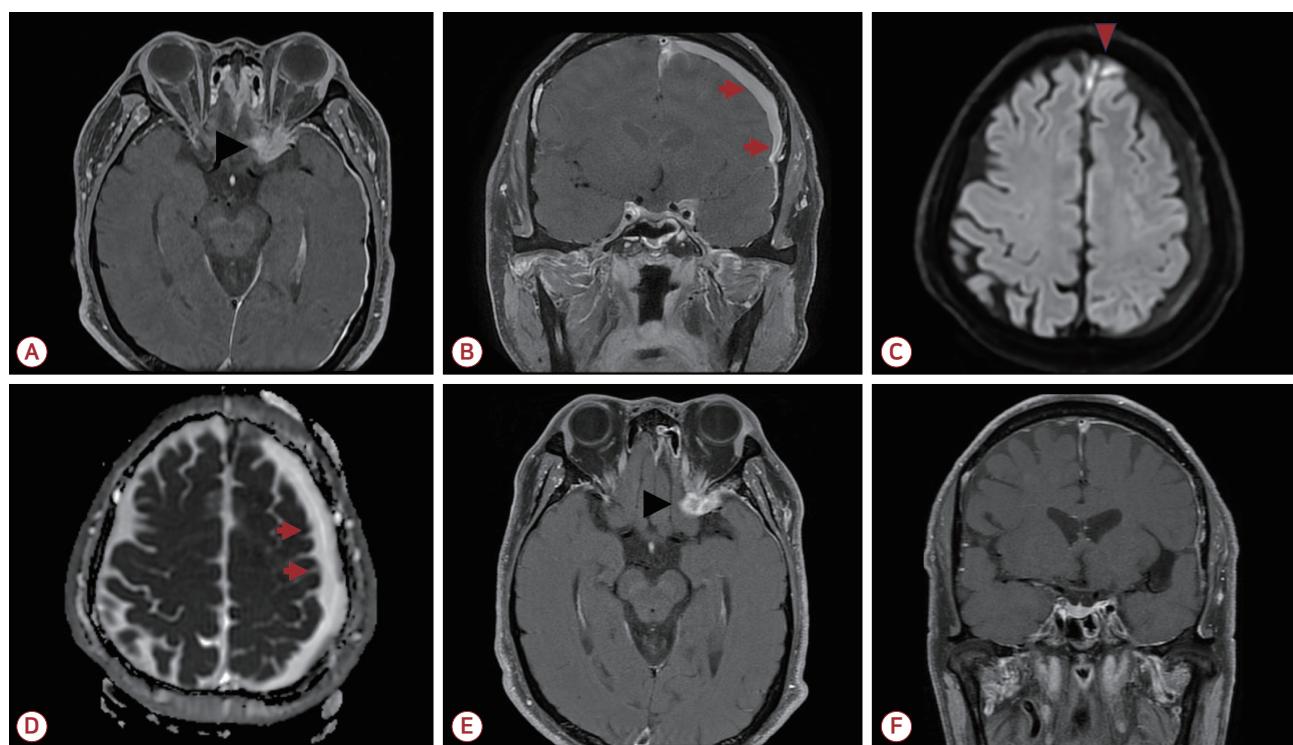


Figure 3. Brain MRI to evaluate orbital apex syndrome (A-D) and follow-up MRI after 3 months of antibiotic treatment (E, F). (A) Axial contrast-enhanced T1-weighted images reveal enhancement at the left orbital apex (black arrowhead) and pachymeningeal enhancement. (B) A subdural collection (arrows), partially enhanced by contrast, is observed in the left frontoparietal lobe. (C) A high signal lesion (red arrowhead) is noted around the left frontal lobe on the DWI, and (D) a prominent high signal lesion (arrows) is detected along the left hemisphere on the ADC maps, consistent with subdural empyema. (E) The enhancing lesion at the left orbital apex (black arrowhead) persists. (F) However, the subdural collection has mostly disappeared after 3 months of antibiotic therapy. MRI; magnetic resonance imaging, DWI; diffusion-weighted image, ADC; apparent diffusion coefficient.

고 찰

본 환자는 8개월간 서서히 악화되고 진행된 경과를 보여 초기에는 부비동염으로 인한 유사 군발두통 양상의 두통이 발생하고 이후 시간이 경과함에 따라 부비동염은 두개 내 침범으로 악화되어 경막밑축농을 발생시킨 것으로 생각된다. 또한 경막밑축농은 뇌전증지속상태와 안와첨단증후군을 일으킨 것으로 추정된다.

군발두통은 드문 삼차자율신경 관련 일차두통이고 다양한 질환에서 유사한 증상을 보일 수 있어 감별 진단이 중요하다.³ 본 환자는 초기에 군발두통으로 진단 후 치료하였으나 7개월 후부터 뇌전증지속상태와 같은 다른 신경학적 질환을 보였고 결국에는 이차두통으로 진단되었다. 초기 두통 증상이 발병할 당시에는 편측으로 발생하는 극심한 두통, 결막 충혈과 콧물 증상만이 확인되어 전형적인 군발두통과 유사하여 진단에 어려움이 있었을 것으로 생각된다. 그러나 본 사례는 전형적인 군발두통과 비교 시 몇 가지 다른 점이 있다. 첫째, 초기 치료에 반응이 있었지만 시간이 지날수록 치료에 점차 반응이 떨어지고 뇌전증지속상태, 시력 저하 등 군발두통에 동반되지 않는 다양한 신경학적 증상을 보여 이차두통을 의심할 수 있었다. 둘째, 일반적으로 군발두통은 남성에게서 더 흔하게 발생하고 주로 20-40대에 시작되는 것으로 알려져 있으나 본 증례의 환자는 군발두통 양상 두통이 67세에 시작되어 군발두통 발생의 역학적 특성과 비교 시 전형적인 군발두통 발생 시기와 다른 점이 있었다.⁶ 마지막으로 부비동염으로 인한 부비동염 내시경 수술 후 동측 눈과 머리에서 두통이 발생하였던 점이 감별 진단에 도움을 줄 수 있었다. 부비동염은 다양한 양상의 이차두통을 유발할 수 있으며 군발두통과 같은 증상도 유발할 수 있다.⁷ 부비동염이 두통을 유발하는 기전은 부비동염의 병원체가 자라면서 부비동 내부 점막에 분포한 삼차신경의 신경 말단을 활성화시켜 두통을 유발하는 것으로 설명되고 있다. 부비동염으로 유발된 군발두통 양상의 증상에서 자율신경계 증상의 기전은 명확히 알려지지 않았지만 부비동 내 점막의 염증은 P물질을 분비시키고 삼차신경절의 들신경통로의 부

교감신경을 활성화시켜 자율신경계 증상을 유발한다.⁸

부비동염은 대개는 심각한 부작용 없이 경미한 임상적 경과를 보이지만 드물게 안와, 주변정맥, 두개골 내부 등을 포함한 인접한 구조물을 침범할 수 있다. 특히 두개강 내부를 침범할 경우 경막밑축농이 잘 생기는 것으로 알려져 있다.⁹ 일반적으로 두통, 발열, 구역감 및 침범 부위와 연관된 국소 신경학적 증상 혹은 경련의 증상, 수막 자극 징후 등을 보일 수 있다. 경막밑축농은 적절한 치료를 받지 않을 시 6-35%의 높은 사망률을 보여 빠른 진단과 치료가 중요하다.¹⁰

본 증례는 군발두통 진단 시 비록 두통 양상이 전형적인 군발두통을 보일지라도 군발두통과 유사한 증상을 일으킬 수 있는 부비동염의 동반, 군발두통 발생과 관련한 비전형적인 인구학적 특징, 이차두통을 시사하는 다른 신경계 증상이 있다면 초기 군발두통 진단에 대한 재고려가 필요함을 보여준다.

REFERENCES

- Headache Classification Committee of the International Headache Society (IHS). The international classification of headache disorders, 3rd edition. *Cephalalgia* 2018;38:1-211.
- Hoffmann J, May A. Diagnosis, pathophysiology, and management of cluster headache. *Lancet Neurol* 2018;17:75-83.
- Schindler EAD, Burish MJ. Recent advances in the diagnosis and management of cluster headache. *BMJ* 2022;376:e059577.
- May A, Schwedt TJ, Magis D, Pozo-Rosich P, Evers S, Wang SJ. Cluster headache. *Nat Rev Dis Primers* 2018;4:18006.
- Long RJ, Zhu YS, Wang AP. Cluster headache due to structural lesions: a systematic review of published cases. *World J Clin Cases* 2021;9:3294-3307.
- Manzoni GC, Taga A, Russo M, Torelli P. Age of onset of episodic and chronic cluster headache - a review of a large case series from a single headache centre. *J Headache Pain* 2016;17:44.
- Buture A, Ahmed F, Dikomitis L, Boland JW. Systematic literature review on the delays in the diagnosis and misdiagnosis of cluster headache. *Neurol Sci* 2019;40:25-39.
- Rodriguez LM, Alvarez AIP, Alvarez JMS. Cluster-like headache secondary to maxillary sinusitis by Aspergillus. *Cephalalgia Rep* 2018;1:2515816318814226.
- Ziegler A, Patadia M, Stankiewicz J. Neurological complications of acute and chronic sinusitis. *Curr Neurol Neurosci Rep* 2018;18:5.
- Chokkappan K, Lohan R. Rapidly developing subdural empyema in an adult with sinusitis: a neurosurgical threat alert. *Asian J Neurosurg* 2018;13:458-461.