



A Case of Grisel’s Syndrome Following Tonsillectomy and Adenoidectomy

Ye-Sol Jung¹, Yoon Heo¹, Jun Yeon Won^{1,2}, and Woo Hyun Lee^{1,2}

¹Department of Otolaryngology, Kangwon National University Hospital, Chuncheon; and

²Department of Otolaryngology, School of Medicine, Kangwon National University, Chuncheon, Korea

편도 및 아데노이드 절제술 후 발생한 그리즐 증후군 1예

정예솔¹ · 허 윤¹ · 원준연^{1,2} · 이우현^{1,2}

¹강원대학교병원 이비인후과, ²강원대학교병원 의과대학·의학전문대학원 이비인후과학교실

Received March 25, 2022

Revised May 10, 2022

Accepted May 16, 2022

Address for correspondence

Woo Hyun Lee, MD
Department of Otolaryngology,
Kangwon National
University Hospital,
156 Baengnyeong-ro,
Chuncheon 24289, Korea
Tel +82-33-258-9108
Fax +82-33-258-9486
E-mail sniper212@hanmail.net

Grisel’s syndrome is a non-traumatic atlantoaxial rotatory subluxation for which the underlying mechanism has not yet been identified. It is known to occur following upper respiratory infections, tonsillitis, ear, nose, and throat (ENT) surgeries such as tonsillectomy and adenoidectomy. The diagnosis of Grisel’s syndrome can be made by plain x-ray, CT scanning, and/or MRI scanning. The first choice of treatment is conservative therapy such as bed rest, muscle relaxation, analgesic therapy, antibiotics, and simple traction. While Grisel’s syndrome occurs rarely, delayed treatment may lead to neurological complications or requires surgical treatment. Early diagnosis and treatment are important in preventing fatal outcome. We report the case of a 9-year-old male who developed Grisel’s syndrome after tonsillectomy and adenoidectomy. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2022;65(11):713-7

Keywords Adenoidectomy; Atlanto-axial joint; Neck pain; Postoperative complications; Tonsillectomy.

서론

편도 및 아데노이드 절제술은 가장 흔히 시행되는 이비인후과 수술이다. 하지만 편도와 아데노이드 절제술 후 합병증으로 통증, 출혈, 기도폐쇄, 술후 폐부종, 구개인두 부전증 등이 발생할 수 있어 수술 후 주의가 요망된다.¹⁾

그리즐 증후군(Grisel’s syndrome)은 비외상성 환축추 회전성 아탈구로 아직 정확한 병인이 알려져 있지 않으며, 상기도 감염, 편도염, 중이염 및 편도와 아데노이드 절제술과 같은 이비인후과 수술 후에 생긴다고 알려져 있다.²⁾ 그리즐 증후군은 1830년 Bell³⁾에 의해 인두의 매독성 궤양의 결과로 발생한 증례가 처음 보고되었지만, 1930년 비인두염 후에 생

긴 비외상성 환축추 회전성 아탈구 사례를 보고한 Grisel의 이름을 따서 명명되었다.⁴⁾ Down 증후군 환자의 편도나 아데노이드 절제술 후에 그리즐 증후군이 발생할 수 있으나 건강한 환자에서는 드물게 보고되는 합병증이다.⁵⁾

저자들은 평소 특이한 병력이 없던 소아에서 편도 및 아데노이드 절제술을 시행한 후 발생한 그리즐 증후군 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

9세 남자 환아가 3년 전부터 시작된 구호흡과 수면 중 코골이를 주소로 내원하였다. 동반 증상으로 콧물, 코막힘이 있었으며 과거력상 특이 소견은 없었다. 내원 시 시행한 내시경 검진 및 단순 부비동 측면 영상에서 편도와 아데노이드의 비대 소견이 관찰되었다(Fig. 1). 편도 및 아데노이드 절제술

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://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.

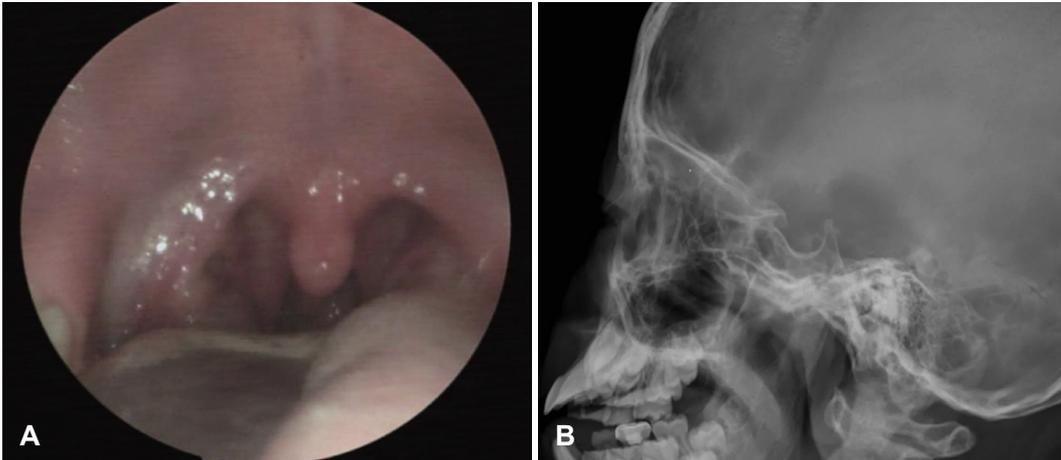


Fig. 1. Preoperative evaluation. A: A preoperative endoscopic image of palatine tonsils. B: A preoperative lateral postnasal space radiograph image of adenoid.

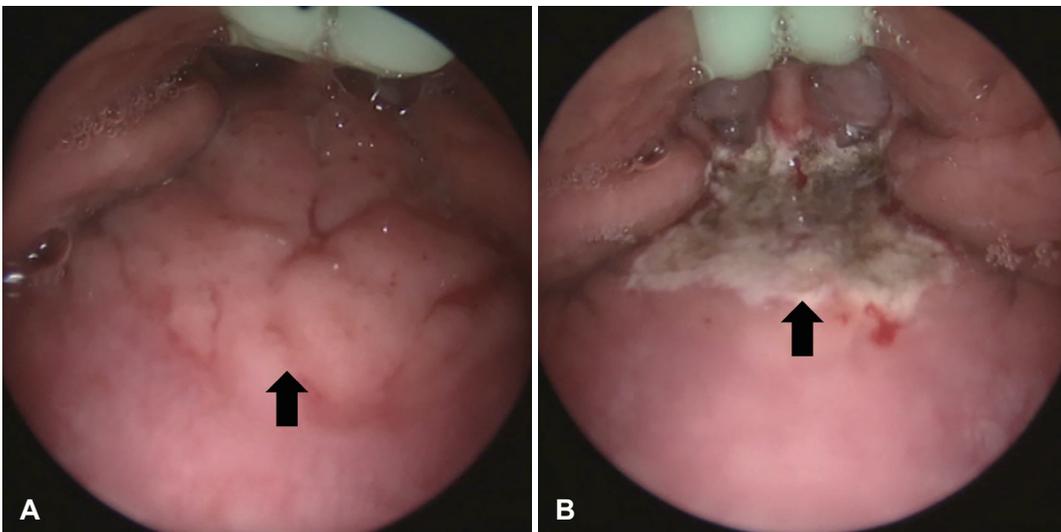


Fig. 2. Intraoperative endoscopic image. A: A preoperative transoral endoscopic image of adenoid (arrow). B: Postoperative image.

을 계획하여 수술 전 검사를 시행하였으며, 혈액 검사와 심전도, 흉부 방사선 촬영에서 특이 소견은 없었다. 이에 전신마취하에서 환아를 Rose 자세로 놓힌 후 McIvor 개구기를 걸어 편도를 노출시켰으며, 코블레이터를 이용해 편도 절제술을 시행하였다. 같은 자세로 McIvor 개구기를 건 상태에서 nelaton 카테터로 연구개를 견인하여 코블레이터를 이용해 아데노이드 절제술을 시행하였다. 총 수술 시간은 35분이었으며, 수술 중 출혈은 경미하였고 특별한 문제없이 수술이 종료되었다(Fig. 2). 환아는 이후 합병증 없이 수술 후 1일째에 퇴원하였다.

환아는 수술 후 7일째에 외래에 재방문하였으며, 수술 후 3일째부터 시작된 사경과 경부 움직임의 제한을 호소하였다. 내원 당시 환아의 두경부는 좌측으로 회전 편위되었으며 턱은 우측으로 기울어져 있었다(Fig. 3). 이학적 검사상 사경의 반대쪽으로 경추 회전 시 통증을 호소하였으나 신경학적으로

는 이상소견이 보이지 않았다. 단순 방사선 검사상 개구 전 후방상 사진에서 치돌기와 환추의 양측피 사이의 외측 관절들이 비대칭을 이루고 있었으며, 경추 컴퓨터단층촬영에서 환추와 축추 사이에 약 20도의 회전 변형과 2.1 mm의 환축추 간격(atlantodental interval)을 동반한 환축추 관절(atlanto-axial joint)의 아탈구 소견이 관찰되었다(Fig. 4A-C).

이러한 검사 소견을 토대로 그리즐 증후군을 진단하였고, 정형외과에 의뢰하여 입원 치료를 시행하였다. 약물 치료로 ampicillin/sulbactam 1.2 g, ibuprofen 10 mL을 하루 3회씩 투약하였으며 동시에 경추 견인 치료(halter traction)를 시행하였다. 입원 후 4일째 시행한 개구 전후방상 사진에서 이전에 보였던 환추 외측피의 비대칭은 대칭으로 교정된 소견이 관찰되었다(Fig. 5). 입원 치료 7일째 사경과 경부 움직임의 제한 및 통증은 완전히 호전되어 퇴원하였으며 연성 경부 보조기(neck miami brace)를 6주간 착용시켰다. 이에 퇴원을

하였고 수술 시행 3주에 외래에 재방문하였으며, 시행한 개구 전후방상 사진에서 환측추 아탈구의 정복이 유지되고 환아의 경부 움직임의 제한과 통증이 완전히 호전되었음을 확인하였다(Fig. 6). 이후 수술 경과 1년까지 특이한 이상소견의 추가 발생 없이 경과 관찰 중이다.

고 찰

그리즐 증후군(Grisel's syndrome)은 비외상성 환측추의 회전성 아탈구로 정의할 수 있으며 임상 병리적 기전에 대하여 아직 명백히 밝혀지지 않았다. 다양한 원인에 의해 발생하는 것으로 알려져 있으나 가장 흔한 발생 원인은 상부호흡기 감염, 편도선염, 중이염, 후인두부 농양 등의 감염성 질환이며, 두 번째로 흔한 원인은 이비인후과 질환과 관련된 수술이다. 그 중에서도 편도 및 아데노이드 절제술 후에 가장 많이 발생하는 것으로 알려졌으며, Karkos 등⁶⁾의 보고에 따르면 1950년부터 2006년까지 총 103명의 그리즐 증후군 환자들 중

31%가 편도 및 아데노이드 절제술 후에 발생하였다. 5-12세 사이의 소아에서 주로 발생하며 성인에서는 매우 드물게 발생한다.⁷⁾ 임상 병리적 기전에 대해서는 명확히 밝혀지지 않았지만 가장 많이 받아들여지는 가설은 다음과 같다. 후비인두 정맥(posterior nasopharyngeal vein)은 치상돌기 주변 혈관총(periodontoid plexus)을 통해 인두척추 정맥(pharyngo-vertebral vein)으로 연결된다. 치상돌기 주변 혈관총(periodontoid plexus)은 림프절을 가지고 있지 않기 때문에 인두 상부에서 만들어진 감염성 색전이 경부 관절 상부까지 직접적으로 들어갈 수 있다. 감염성 색전에 의해 생긴 염증은 혈액의 유입을 증가시켜 횡인대와 익상인대를 비정상적으로 이완시켜 환측추의 아탈구를 유발할 수 있다고 알려져 있다.⁸⁾

Fielding과 Hawkins⁹⁾는 환측추 회전성 아탈구를 4가지 형태로 분류하였다. 제 I형은 환추의 전방 전위가 없거나 3 mm 이하의 전위가 있는 경우이다. 이 유형은 횡인대나 익상인대의 결합 없이 치돌기를 축으로 하여 회전이 일어난 경우로 가장 흔하다. 제 II형은 환추가 3-5 mm 전방 전위가 있으며 횡인대의 결합으로 인해 환측 환측추 관절을 축으로 회전이 일어난 경우이다. 제 III형은 환추가 5 mm 이상 전방 전위를 일으킨 경우로 횡인대와 익상인대의 결합과 연관이 있다. 제 IV형은 환추가 후방으로 전위된 경우이며 치돌기의 골절이나 선천적인 이상으로 나타날 수 있다. 제 I형은 비교적 예후가 좋으나 제 III형과 IV형은 드물며 예후가 나쁘고 심각한 장애를 초래할 수도 있다. 이 분류에 따르면 본 증례의 경우는 제 I형에 해당한다.

그리즐 증후군 환자들은 전형적으로 사경, 경부 움직임의 제한과 통증을 보이고 상기도 감염이나 이비인후과 수술의 과거력이 있다. 특징적으로 머리가 일측으로 기울어진 상태에서 반대편으로 회전된 형태인 cock-robin position을 보인다. 선천성 근성 사경과 감별해야 할 점으로 그리즐 증후군 환자들은 경부 운동시 심한 통증이 동반되나 선천성 근성 사경인 경우는 대부분 통증이 없다. 또한 선천성 근성 사경에서는



Fig. 3. A clinical image of a 9-year-old boy with atlantoaxial rotatory subluxation. The head is tilted to left side with rotation to the right side and flexion.

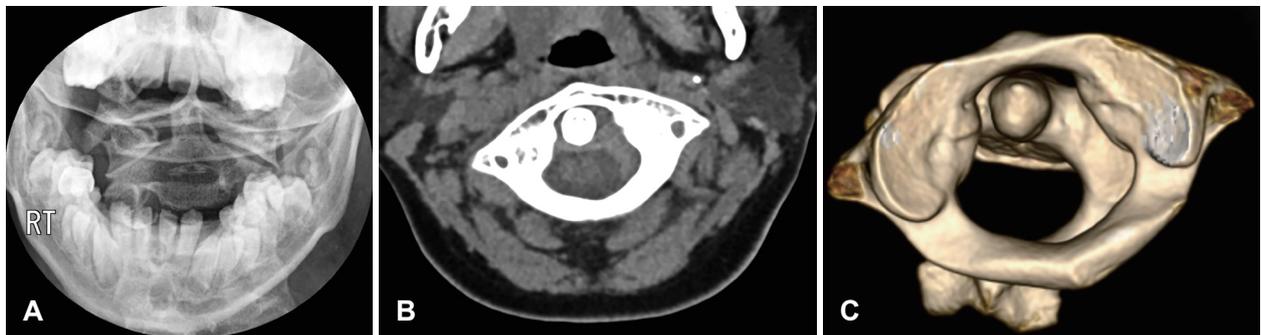


Fig. 4. Cervical spine image. A: A cervical spine open mouth radiograph image shows asymmetrical odontoid process in relation to the lateral masses of the atlas before treatment. B: CT scan shows atlantoaxial rotatory subluxation with anterior displacement of the atlas relative to the axis (Fielding type I subluxation). C: Three-dimensional reconstruction of axial image shows atlantoaxial subluxation.



Fig. 5. 4 days after halter traction. A follow-up cervical spine open mouth radiograph image shows normal atlantoaxial alignment.

홍쇄유돌근의 단축을 보이나 그리즐 증후군 환자들은 홍쇄 유돌근의 단축 없이 회전된 쪽이 오히려 길어지는 것으로 구분된다.¹⁰⁾

그리즐 증후군이 의심되는 경우 먼저 단순 방사선 검사를 시행해야 하며 추가적으로 전산화단층촬영과 자기공명영상을 시행해 볼 수 있다. 개구 전후방상 사진에서 환추의 일측 측과 전방, 중앙 측으로 회전되어 있어 치돌기와 환추의 양 측과 사이의 외측 관절들이 비대칭을 이뤄 나타나는 wink sign을 관찰할 수 있다. 3D CT 스캔이 그리즐 증후군의 진단에 최적의 방법이며 뼈의 구조가 매우 뚜렷하게 보이기 때문에 환축추의 아탈구를 확진할 수 있다.¹¹⁾ 본 증례에서는 병력 청취와 이학적 검사, 단순 방사선 촬영을 통해 그리즐 증후군을 의심하였고 3D CT 스캔을 통해 확진할 수 있었다.

치료는 대부분 침상 안정, 근육 이완제, 진통 소염제, 항생제, 경추 견인 등의 보존적 치료를 시행한다. 경추 견인을 통해 정복을 시행한 후에는 연성 경부보조기를 착용하여 정복을 유지한다. 경추 견인으로도 정복되지 않는 경우에는 수술적 치료가 요구된다.

아테노이드 절제술은 이비인후과에서 흔하게 행해지는 수술 중 하나로 아테노이드 큐렛을 이용한 고식적 아테노이드 절제술, 전기 흡입소작기를 이용한 아테노이드 절제술, 코블레이터를 이용한 아테노이드 절제술 등 수많은 방법들이 술자의 선호도에 따라 시행되고 있다. 고식적 아테노이드 절제술만 시행하였던 때와 비교해서 전기 흡입소작기를 이용한 아테노이드 절제술의 도입 후에 그리즐 증후군 환자들이 더 많이 발생하였다는 이전의 연구들이 있으며¹²⁾ 고식적 아테노이드 절제술, 전기 소작흡입기를 이용한 아테노이드 절제술과 비교하였을 때 코블레이터를 이용한 아테노이드 절제술 후에 목 통증을 호소하는 환자들이 더 적었다.¹³⁾



Fig. 6. A postoperative 3 weeks follow-up clinical image.

국내에는 방사선 치료를 받은 성인 편도암 환자에서 편도 절제술 후 그리즐 증후군이 발생한 보고가 1예가 있으며,¹⁴⁾ 본 증례는 소아에서 편도 절제술 및 아테노이드 절제술 후 그리즐 증후군이 발생하였으며 조기 진단을 통해 합병증이나 수술적인 치료 없이 보존적 치료로 좋은 결과를 얻을 수 있었다. 이비인후과 수술 후 생기는 그리즐 증후군은 드물게 발생하지만 치료가 지연될 경우 신경학적 합병증을 초래하거나 수술적 치료가 필요할 수 있으므로 적절한 조기 진단 및 치료가 중요하다.

Acknowledgments

None

Author Contribution

Conceptualization: Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee. Formal analysis: Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee. Supervision: Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee. Writing—original draft: Ye-Sol Jung. Writing—review & editing: Yoon Heo, Jun Yeon Won, Woo Hyun Lee.

ORCID

Woo Hyun Lee <https://orcid.org/0000-0001-7725-4146>
 Ye-Sol Jung <https://orcid.org/0000-0003-2383-0675>
 Yoon Heo <https://orcid.org/0000-0003-3372-7241>
 Jun Yeon Won <https://orcid.org/0000-0002-1615-3760>

REFERENCES

- 1) Carithers JS, Gebhart DE, Williams JA. Postoperative risks of pediatric tonsilloadenoidectomy. *Laryngoscope* 1987;97(4):422-9.
- 2) Wilson BC, Jarvis BL, Haydon RC 3rd. ontraumatic subluxation of the atlantoaxial joint: Grisel's syndrome. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1987;96(6):705-8
- 3) Bell C. The nervous system of the human body: Embracing the papers delivered to the Royal Society on the subject of the nerves.

- London: Longman, Rees, Orme, Brown, and Green;1830.
- 4) Grisel P. Enucleation de l'atlas et toricollis nasopharyngien. *Presse Méd* 1930;38:50-3.
 - 5) Hirth K, Welkoborsky HJ. [Grisel's syndrome following ENT-surgery: Report of two cases]. *Laryngorhinootologie* 2003; 82 (11):794-8.
 - 6) Karkos PD, Benton J, Leong SC, Mushi E, Sivaji N, Assimakopoulos DA. Grisel's syndrome in otolaryngology: A systematic review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2007;71(12):1823-7.
 - 7) Bocciolini C, Dall'Olio D, Cunsolo E, Cavazzuti PP, Laudadio P. Grisel's syndrome: A rare complication following adenoidectomy. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2005;25(4):245-9.
 - 8) Yu KK, White DR, Weissler MC, Pillsbury HC. Nontraumatic atlantoaxial subluxation (Grisel syndrome): A rare complication of otolaryngological procedures. *Laryngoscope* 2003;113(6):1047-9.
 - 9) Fielding JW, Hawkins RJ. Atlanto-axial rotatory fixation. (Fixed rotatory subluxation of the atlanto-axial joint). *J Bone Joint Surg Am* 1977;59(1):37-44.
 - 10) Li V, Pang D. Atlanto-axial rotatory fixation. In: Pang D, editor. *Disorders of the Pediatric Spine*. New York: Raven Press;1995. p.531-53.
 - 11) Deichmueller CM, Welkoborsky HJ. Grisel's syndrome--a rare complication following "small" operations and infections in the ENT region. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2010;267(9):1467-73.
 - 12) Tschopp K. Monopolar electrocautery in adenoidectomy as a possible risk factor for Grisel's syndrome. *Laryngoscope* 2002;112 (8 Pt 1):1445-9.
 - 13) Glade RS, Pearson SE, Zalzal GH, Choi SS. Coblation adenotonsillectomy: An improvement over electrocautery technique? *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;134(5):852-5.
 - 14) Choi YS, Bae CH, Kim YD, Song SY. A case of atlanto-axial joint subluxation following tonsillectomy in patient of tonsillar cancer with preoperative radiotherapy: Grisel's syndrome. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2016;59(8):604-8.