

근간대경련으로 발현한 팔다리떨림일과성허혈발작

은정익 김형찬

인제대학교 의과대학 해운대백병원 신경과

Limb-Shaking Transient Ischemic Attack Presenting with Myoclonus

Jeong Ik Eun, MD, Hyung Chan Kim, MD

Departments of Neurology, Haeundae Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Busan, Korea

Limb-shaking transient ischemic attack is a rare disease, associated with the steno-occlusion of the internal carotid artery. It is caused by hemodynamic dysfunction in the anterior circulation. It is difficult to observe patients directly in clinical settings since they visit the hospital after symptoms have subsided which usually last less than 5 minutes. Here we report a patient who developed right arm dominant myoclonus related to left internal carotid artery occlusion along with a recorded video.

J Korean Neurol Assoc 39(3):207-209, 2021

Key Words: Transient ischemic attack, Myoclonus, Limb-shaking

팔다리떨림일과성허혈발작은 드물게 보고되고 있으며 일반적으로 심한 경동맥협착, 혹은 폐색 환자에서 전방 순환의 혈류역학 장애가 나타날 때 발생할 수 있고 대부분 5분 미만의 증상을 가지는 것으로 알려져 있다.¹ 매우 드물게 근간대경련으로 발현한 보고가 있으나^{2,3} 증상이 호전된 상태로 내원하는 경우가 많기 때문에 환자의 증상을 임상에서 직접 눈으로 관찰할 수 있는 경우는 많지 않다. 저자들은 우측 상지에서 우세한 근간대경련이 발생한 좌측 경동맥폐색 환자를 동영상과 함께 보고하고자 한다.

생하여 입원하였고 좌측 전두엽과 두정엽에 색전 양상의 급성 뇌경색, 좌측 경동맥폐색, 우측 경동맥의 중등도 협착(Fig. A)으로 진단되어 두 가지 항혈소판제를 복용 중이었으며 증상은 완전히 회복되었다.

PTCA 시행 후 특별한 증상 없이 입원 중이었으나 2일 후 갑자기 어지럼, 떨림이 발생하여 신경과로 협진되었다(Supplementary Video 1). 입원 당시 환자의 혈압은 150/80 mmHg, 맥박은 분당 60회, 호흡수는 분당 20회였으며 체온은 36.5°C였다. 혈액검사서 당화혈색소 10.4%로 증가되어 있었고 전체혈구계산, 일반화학검사, 감상선기능 검사에서 이상은 없었다. 신경계진찰에서 의식은 명료하였으며, 뇌신경검사서 특이 소견은 없었고 운동, 감각 기능 및 소뇌검사서 이상은 관찰되지 않았다. 손을 앞으로 뻗었을 때 우측이 우세한 양측 상지의 근간대경련이 관찰되었다. 증상 발생 당시 혈압은 100/60 mmHg으로 입원 당시보다 감소되어 있었으며 혈당은 인슐린으로 조절하였기 때문에 식후 175 mg/dL로 잘 조절되고 있었다. 경련을 감별하기 위해 시행한 뇌파검사서 이상은 보이지 않았으나 뇌 자기공명영상(magnetic resonance imaging)에서 좌측 전두엽 피질과 피질하 고신호강도병변이 확산강조영상(diffusion weighted imaging)에서 나타났다(Fig. B). 단일광자방출컴퓨터단층촬영(single photon emission computed tomography, SPECT)에서 기저 상태, Diamox 주입 후 모두 좌측 전두엽, 측두엽 부위에서 광범위한 관류저하가 관찰되었다(Fig. C). 두 가지 항혈소판제를 복용 중이었기 때문에 고지질혈증 약제를 증량하였고 정맥내 수액공급 후 증상은 3시간

증례

77세 남성이 관상동맥병 진단 후 추적 피부경유혈관경유관상동맥성형술(percutaneous transluminal coronary angioplasty, PTCA)을 위해 심장내과로 입원하였다. 환자는 20년 동안 당뇨로 약물 치료를 하였고 2년 전 흉통으로 관상동맥병을 진단받았으나 1년 전부터 자의로 약물 중단하였다. 4개월 전 우측 상지의 위약이 발

Received May 14, 2021 Revised June 2, 2021

Accepted June 2, 2021

Address for correspondence: Hyung Chan Kim, MD
Departments of Neurology, Haeundae Paik Hospital, Inje University College of Medicine, 875 Haeundae-ro, Haeundae-gu, Busan 48108, Korea

Tel: +82-51-797-1195 Fax: +82-51-797-1196

E-mail: dk10108@naver.com

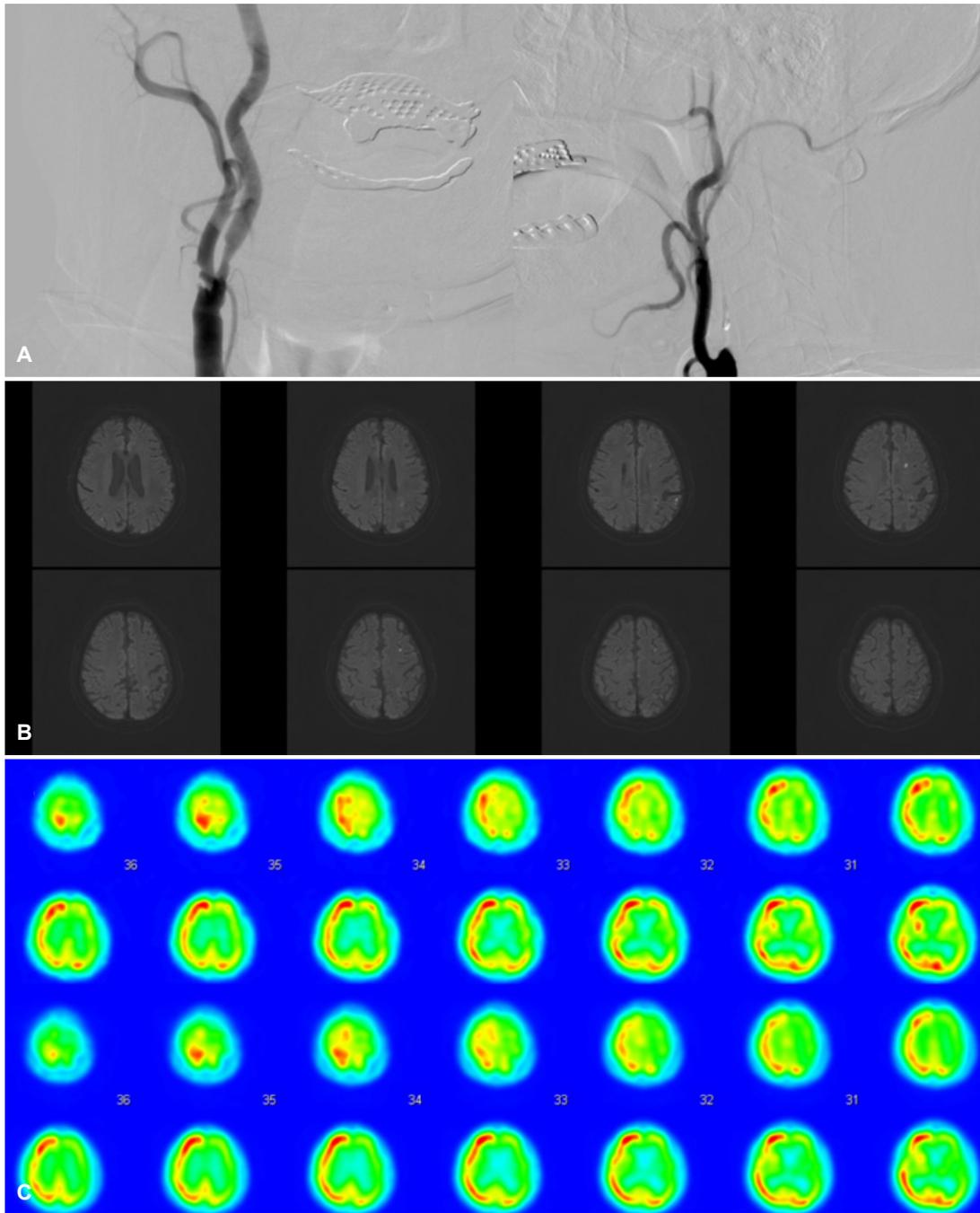


Figure. (A) DSA shows moderate right ICA stenosis (left), left ICA occlusion (right). (B) DWI reveals multiple scattered focal diffusion restriction lesions involving left frontoparietal lobe, right parietal cortex. (C) Diamox SPECT shows basal hypoperfusion in the left hemisphere (upper two rows), and no change after diamox injection (lower two rows). DSA; digital subtraction angiography, ICA; internal carotid artery, DWI; diffusion weighted image, SPECT; single photon emission computed tomography.

만에 호전되었다(Supplementary Video 2). 환자는 고령 및 심장질환으로 수술 위험도가 높아 우회로 조성술을 시행하지 못하였기 때문에

결순환을 통한 혈류 개선을 위해 중등도의 협착이 있던 우측 내경동맥에 스텐트삽입술을 시행하였고 이후 증상은 재발하지 않았다.

고찰

일과성허혈발작에서 나타나는 떨림은 1962년 Fisher에 의해 처음 보고되었으며 일반적으로 경련에서 나타나는 된떨림과는 다르게 떨림(trembling), 흔들림(shaking), 꼬임(twisting), 불규칙적인 움직임(moving irregularly)으로 기술하였다.⁴ 하지만 증상이 나타나는 순간 임상에서 직접 관찰하는 경우는 드물고 환자의 병력과 진술에 의존해서 진단을 하기 때문에 경련과의 감별이 필요하다. 경련과의 차이점으로는 의식 변화가 나타나지 않고 자세 변화에 의해 유발될 수 있으며 증상이 진행(e.g., Jacksonian march)하지 않고 뇌파에서 뇌전증모양방전이 나타나지 않는 것에 차이가 있다.¹

뇌졸중 발생시 운동과다 증상이 발생하는 것은 1% 정도로 매우 드문 것으로 알려져 있으며 편측무도증-편측도리깨운동증(hemichorea-hemiballism)이 가장 흔하며 반신근긴장이상이 두 번째로 흔한 증상이다.⁵ 하지만 내경색맥폐색이 있는 뇌경색 환자를 분석한 연구에서는 팔다리떨림이 28.6% (42/260)에서 관찰되었으며 3개월 후 수정Rankin척도를 비교하였을 때 팔다리떨림이 없는 군에 비해 예후가 나쁜 것으로 알려져 있다.⁶

아직까지 경동맥폐색 혹은 심한 협착 환자에서 팔다리떨림이 나타나는 것에 대한 정확한 기전은 밝혀진 것이 없으나 대뇌 관류저하가 중요한 원인일 것으로 추측하고 있다. 두개경요도플러를 이용한 연구에서 이산화탄소 흡입을 하였을 때 팔다리떨림이 나타난 반대쪽 중대뇌동맥에서 평균 속도가 감소하여 혈관반응성이 감소한 것이 관찰되었으며,⁷ 팔다리떨림이 있는 좌측 경동맥협착 환자에게 자세 변화에 따른 SPECT를 시행하였을 때 기립 시 양측 경동맥 영역에서 관류저하가 관찰되었고 동맥내막절제술 후 증상과 관류저하가 사라진 것이 확인되었다.⁸ 특히 기립, 목의 과신전, 운동, 따뜻한 장소에 노출, 기침, 고혈압 약제와 같이 관류 변화가 나타날 수 있는 자세나 환경이 증상을 유발할 수 있는 것으로 알려져 있다.¹

일반적으로 뇌졸중과 연관된 근간대경련은 시상(특히, 배쪽가쪽핵)과 관련성이 높은 것으로 알려져 있으며 소뇌-뇌간-시상-전두엽계의 뇌간-척수로의 기능 조절장애로 발생하는 것으로 추측하고 있으나⁹ 피질의 기능 이상으로 증상이 유발된다는 가설도 제시되었다. Jerk-locked back-averaging 방법으로 시행한 뇌파에서 근간

대경련이 발생하기 20 milliseconds 전에 반대측의 감각운동피질의 양성파가 관찰되었고,² 또 다른 증례에서는 팔다리떨림일과성허혈발작 환자에서 증상 발생 당시 근전도검사를 시행하였고 음성 근간대경련의 파형이 나타나 관류저하가 운동피질의 조절 능력 상실로 인해 근간대경련이 나타난 것으로 추측하고 있다.³ 본 증례의 경우 뇌파검사서 이상 소견이 관찰되지 않았기 때문에 아마도 전자의 뇌간-척수로의 기능이상으로 발생하였을 가능성이 있다.

본 증례의 경우 PTCA 후 혈관확장제를 투여하였고 입원 당시보다 수축기 혈압이 50 mmHg 이상 감소된 상황에서 대뇌관류저하로 인해 증상이 발생한 것으로 추측된다. 충분한 정맥내 수분 공급 후 혈압은 130/70 mmHg까지 회복되었고 이후 증상은 재발하지 않아 유발인자를 확인하기 어려웠으나 증상 발생 당시의 근간대경련이 대뇌 관류저하의 반대측으로 우세하게 나타났기 때문에 해부학적, 기능적 연관성이 있으며 이것을 동영상으로 확인할 수 있다는 데 의의가 있다. 저자들은 근간대경련으로 발현한 팔다리떨림일과성허혈발작 환자를 경험하였기에 이를 보고한다.

REFERENCES

1. Persoon S, Kappelle LJ, Klijn CJ. Limb-shaking transient ischaemic attacks in patients with internal carotid artery occlusion: a case-control study. *Brain* 2010;133:915-922.
2. Muraga K, Suda S, Nagayama H, Okubo S, Abe A, Aoki J, et al. Limb-shaking TIA: cortical myoclonus associated with ICA stenosis. *Neurology* 2016;86:307-309.
3. Yoon Y, Kim JS. Limb-shaking TIA: an asterixis. *Neurology* 2013;81:931-932.
4. Fisher CM. Concerning recurrent transient cerebral ischemic attacks. *Can Med Assoc J* 1962;86:1091-1099.
5. Ghika-Schmid F, Ghika J, Regli F, Bogousslavsky J. Hyperkinetic movement disorders during and after acute stroke: the Lausanne Stroke Registry. *J Neurol Sci* 1997;146:109-116.
6. Knoflach M, Matosevic B, Meinhart M, Rucker M, Furtner M, Zangerle A, et al. Prognostic relevance of limb shaking in symptomatic carotid artery occlusion. *Cerebrovasc Dis* 2011;32:35-40.
7. Baumgartner RW, Baumgartner I. Vasomotor reactivity is exhausted in transient ischaemic attacks with limb shaking. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1998;65:561-564.
8. Bund C, Heimburger C, Wolff V, Namer IJ. Positional brain single-photon emission computed tomography findings in a case of limb-shaking syndrome. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2018;27:1420-1422.
9. Kim JS. Asterixis after unilateral stroke: lesion location of 30 patients. *Neurology* 2001;56:533-536.

은정익 김형찬

Supplementary Video 1. The patient showed myoclonic jerk in both (right > left) arms.

Supplementary Video 2. The patient's myoclonus was disappeared after intravenous hydration with normal saline.