

섬유근통 환자에 동반된 근긴장 이상에서의 심부뇌자극 치료 1예

메리놀병원 류마티스내과

김동규 · 이지현 · 김성준 · 박민기 · 박수호 · 황지연

Fibromyalgia Complicated with Dystonia Successfully Treated with Deep Brain Stimulation: a Case Report and Review of the Literature

Dong Kyu Kim, Ji Hyun Lee, Sung Jun Kim, Min Gi Park, Su Ho Park, and Ji Yeon Hwang

Division of Rheumatology, Department of Internal Medicine, Maryknoll Medical Center, Busan, Korea

Focal dystonia is a neurological condition affecting a muscle or group of muscles in a specific part of the body, leading to involuntary muscular contractions. This condition is often treated with medications including muscle relaxants and injections of botulinum toxin. However, some cases do not respond to normal modes of treatment. Deep brain stimulation (DBS) can be a therapeutic option for patients who are resistant to medical treatment. We report a case of fibromyalgia accompanied by focal hand dystonia, where unilateral DBS improved the patient's focal dystonic movement. We also present a review of the relevant literature. (Korean J Med 2016;90:270-273)

Keywords: Focal dystonia; Fibromyalgia; Deep brain stimulation

서 론

근긴장 이상(dystonia)은 지속적 또는 간헐적 근육수축에 의해서 비정상적인 반복적 운동이나 자세를 보이는 증상을 총칭하며 일반적으로 작용근과 대항근의 동시 수축으로부터 기인하는 이상운동증의 범주로 생각된다[1]. 그중 수부 근긴장 이상은 일정한 동작을 주의 깊게 장시간 계속함으로써 발생하며, 고도로 숙련된 움직임에서 자신의 의지와 관계없이 손가락이 굴곡 또는 신전하게 된다[2]. 발병기전으로는 유전적 원인, 출산 중 후유증, 신체적 외상, 감염, 중독, 약물, 특히

항정신병 약제가 관련이 있다고 알려져 있다. 많은 환자에서 근긴장 이상 발생 전에 정신적 스트레스가 있었다고 알려져 있으며, 정신적 스트레스와 관련된 질환으로 알려진 섬유근통 환자에서도 근긴장 이상의 증례가 보고된 바가 있다[3].

아직까지 확실한 치료 방법은 없으며 항콜린성 약물, 감각운동성 훈련, 고정, 신체적 재활훈련, 보툴리눔 독소 주사 등의 여러 치료 방법들이 시도되고 있다. 그러나 증상의 조절이 어렵고 재발이 흔하며 약물의 경우 부작용으로 약물을 지속할 수 없는 경우가 발생하기도 한다. 이러한 경우 수술적 치료가 대안이 될 수 있으며, 국내의 경우에도 수부 근긴장 이

Received: 2015. 8. 28

Revised: 2015. 9. 10

Accepted: 2015. 10. 5

Correspondence to Ji Hyun Lee, M.D.

Division of Rheumatology, Department of Internal Medicine, Maryknoll Medical Center, 121 Junggu-ro, Jung-gu, Busan 48972, Korea
Tel: +82-51-461-2469, Fax: +82-51-441-6950, E-mail: ete@lycos.co.kr

Copyright © 2016 The Korean Association of Internal Medicine

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

상 환자에서 심부뇌자극 치료(deep brain stimulation, DBS)를 이용하여 효과적으로 치료한 예가 보고된 바가 있다[4].

저자들은 2년 전 섬유근통으로 진단 후 약물 치료 중이던 환자에서 우측 3, 4, 5번 손가락의 비수의적 굴곡구축 및 손가락이 떨리는 증상이 있어 수부 근긴장 이상으로 진단하였다. 근이완제 투여 및 보툴리눔 독소 주입을 하였으나 호전이 없었으며 이후 심부뇌자극 치료를 시행하여 호전된 1예를 경험하고 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 여자 42세

주 소: 3개월간 지속된 우측 손의 불수의적인 근수축과 글을 쓰는 동안 심해지는 손의 강직

과거력: 수면 장애 및 우울, 불안 증세로 2013년 3월에 우울증(major depressive disorder)을 진단받았고 duloxetine과 bromazepam을 복용하였다. 그와 동시에 전반적인 몸의 통증, 관절통, 편두통, 무력감 등을 호소하여 섬유근통을 진단받았으며(widespread pain index 11 + symptom severity scale 5,

fibromyalgia impact questionnaire [FIQ] 점수 63), pregabalin과 tramadol을 처방받았다. 이후 환자는 수면 장애 및 통증의 경한 호전을 보였다. 이후 15개월간 같은 약제를 처방받아오다 체중증가가 있어 pregabalin은 중단하였다.

직 업: 20대 초반부터 식당에서 주방 일을 하고 있었다.

가족력: 특이사항은 없었다.

현병력: 내원 3개월 전에 환자는 우측 3, 4, 5번 손가락의 갑작스러운 불수의적 근수축을 경험했다. 글을 쓰는 동안 주먹이 짝 쥐어지며 손가락이 떨리는 증상(Fig. 1A)을 호소하였으며, 이러한 움직임은 글을 쓰는 동안 있었다가(Fig. 2A) 휴식할 때나 잠이 들었을 때는 발생하지 않았다. 증상이 발생하기 전, 3개월간 처방된 약제 변화는 없었으며, 정신적 충격이나 외상은 없었다. 일반혈액 검사, 면역학적 검사, 갑상선기능 검사, 생화학적 검사 등의 혈액학적 검사 및 근전도 검사는 이상이 없었으며 뇌 자기공명영상(magnetic resonance image)에서 미세혈관병증 외 다른 특이소견은 관찰되지 않았다. 신경학적 검사에서는 우측 손가락의 외전과 신전, 우측 손목의 굽힘에 대한 근긴장 이상이 확인되었다.

손에 발생한 국소 근긴장 이상으로 진단하였으며 duloxetine

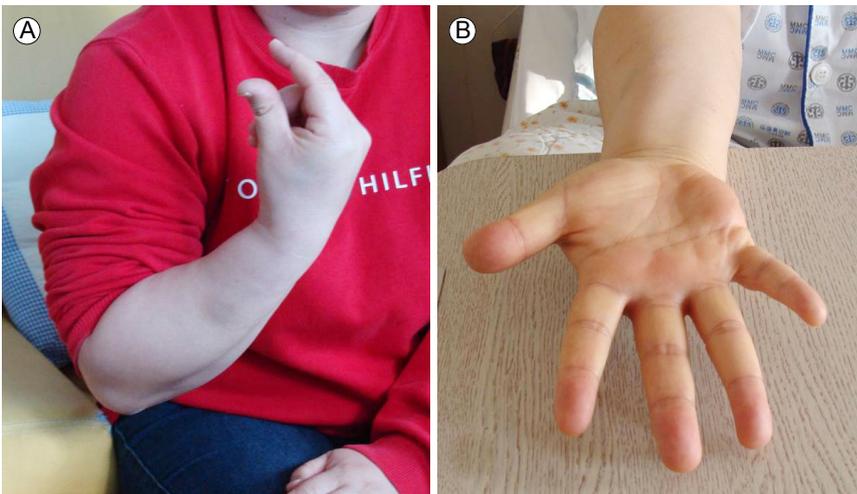


Figure 1. (A) Flexion of the 3rd, 4th, and 5th fingers of the right hand and stiffness in the right hand causing involuntary muscular contractions during writing. (B) No involuntary muscular contractions of the right hand were present while at rest.

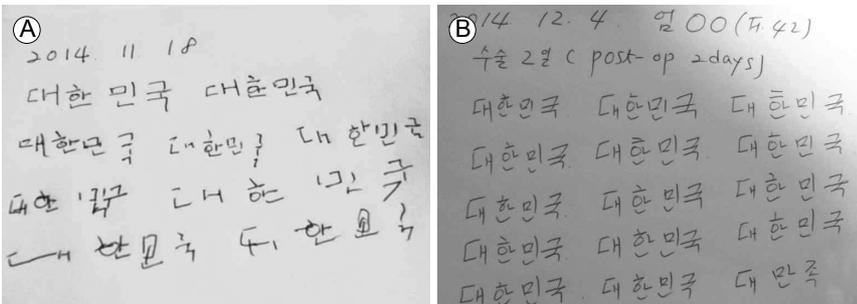


Figure 2. Letters written by the patient (A) preoperatively. (B) After thalamic stimulation, an improvement in the patient's writing was noted.

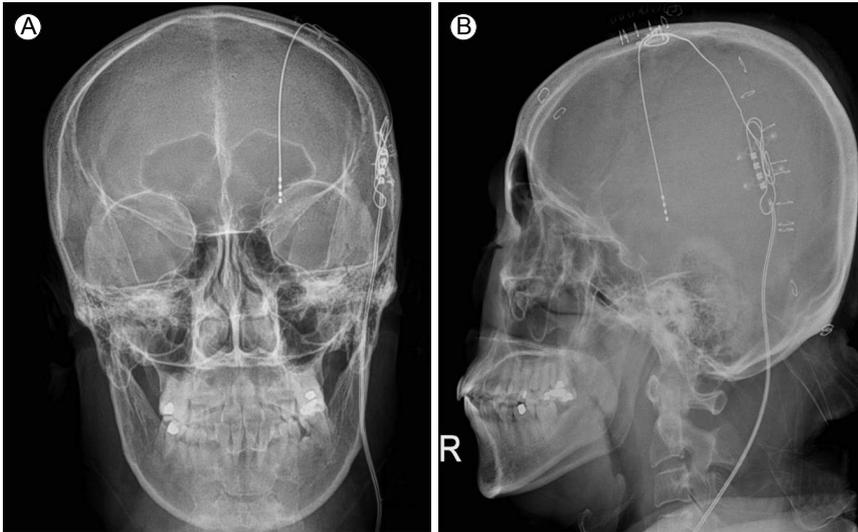


Figure 3. Postoperative X-ray shows the proper location of the leads, (A) axial and (B) lateral images. R, right.

이 근긴장 이상을 유발할 수 있기에 중단하였다. 하지만 증상은 호전되지 않았고 항콜린성 약물인 benztropine, 근이완제인 baclofen 처방 및 보툴리눔 독소 주사 치료를 하였으나 효과가 없어 심부뇌자극 치료를 시행하였다. 국소 마취하에 좌측 창백핵 내부(left globus pallidus interus)로 4극 DBS 전극(DBS Model 3387, Medtronic, Brooklyn, NY, USA)을 편측 삽입하였다(Fig 3). 환자는 술 후 우측 전완과 오른손에서 불수의적인 근수축은 관찰되지 않았으며(Fig. 1B), 글 쓰는 것에서 상당한 증상의 호전을 보였다(Fig. 2B). Benztropine 및 baclofen은 중단하였으며 이후 증상의 재발 없이 9개월째 외래에서 추적관찰 중이다.

고 찰

근긴장 이상(dystonia)은 지속적인 근육수축에 의해 반복적인 운동 혹은 비정상적인 자세를 보이는 증상군으로 현재까지 발생 원인 및 역학이 잘 알려지지 않고 치료가 힘든 질병 중의 하나이다. 다양한 임상양상을 보이지만 특징적으로 동일한 작용근과 대항근이 동시에 수축하는 양상을 보인다[1].

대부분 특발성으로 발생하나 특정 원인질환이나 상태와 관련되어 발생되기도 한다. 특발성으로 발생하는 경우는 발병연령, 침범 부위(국소성[focal], 분절성[segmental], 전신[generalized]), 임상양상 혹은 유전적 배경에 따라 다양하게 분류된다. 국소 근긴장 이상은 신체 한 부분만 침범한 것으로 눈꺼풀 연축, 기운목(torticollis), 입턱 근육 긴장(oramandibular dystonia), 강직 혹은 연축 발성 장애(spastic or spasmodic dysphonia), 필기 경련(writer's cramp), 직업성 경련(occupational cramp)

등으로 분류된다. 음악가 경련이나 필기 경련이라고 불리는 수부 근긴장 이상은 계속적으로 글을 쓸 때 수부가 비정상적으로 뻣뻣해져서 글쓰기에 점진적인 어려움을 보이는 것이 특징으로, 정확한 근육 통제의 상실과 지속적인 불수의적 움직임으로 인해 근육의 지속적인 사용이 불가능하게 된다[2].

수부 근긴장 이상의 정확한 원인은 알려져 있지 않으나 반복된 사용 등의 요인과 유전적 요인 등이 작용할 것으로 생각되며 이외 해부학적인 손의 이상이나 이전에 발생한 조직 손상, 보상적으로 잘못 적응된 신경 전달 등이 그 원인으로 생각된다[5]. 이 외에도 심리적 원인이 관여한다는 주장도 제기되고 있다. Jabusch 등[6]은 근긴장 이상 환자에서 불안 장애나 사회공포증 같은 정서적인 이상 상태가 흔히 관찰된다고 하였으며 국소 근긴장 이상을 가진 환자는 완벽주의적인 경향이 많다는 보고도 있다[7]. 수부 근긴장 이상 환자 39명을 대상으로 정신과적 질환의 유병률을 조사한 한 연구에서는 17.95%의 환자에서 재발성 우울증이 관찰된다고 보고하였으며 이의 기전으로 두 질환이 유사한 유전적 소인을 가지고 있다는 가설 및 유사한 뇌 부위의 이상, 즉 도파민 수용체가 풍부한 선조체(striatum)의 이상 등을 제시하였다[8]. 섬유근통 역시 정서적인 문제가 자주 동반되는 질환으로 최근 섬유근통 환자에 동반된 근긴장 이상이 1예 보고된 적이 있다[3]. 본 증례의 경우 우울증과 섬유근통을 둘 다 가지고 있었으며 두 가지 질환 모두 근긴장 이상의 발생과 관련이 있을 것으로 생각된다. 약제에 의해서도 발생할 수 있는데 이에 해당되는 약제로는 항우울제, 진토제, 항정신병 약제 등이 있으며 duloxetine에 의한 급성 근긴장 이상이 보고된 바가 있다[9]. 본 증례의 경우 duloxetine 30 mg/day를 복용하고 있었으며 약제에 의한

근긴장 이상을 배제하기 위해 중단되었으나 증상이 없어지지 않아 약제에 의한 근긴장 이상은 배제하였다.

치료의 경우 근긴장 이상을 악화시킬 수 있는 동작을 줄이고 스트레스의 감소, 휴식, 적절한 운동과 이완 등 여러 방법이 시도되고 있으나 확실한 방법은 없다. 항콜린성 약물이나 근이완제, gamma-aminobutyric acid (GABA)성 약물, 도파민성 약물과 같은 각기 다른 신경전달물질에 영향을 주는 여러 종류의 약물들을 사용해 볼 수 있으며 효과가 없을 경우 보툴리눔 독소 주사를 시도해 볼 수 있다. 보툴리눔 독소는 근육의 수축을 일으키는 아세틸콜린의 방출을 막아서 근육의 경직을 감소시키는 효과가 있으며 주사 며칠 후 효과가 나타나 수개월 정도 지속된다. 약물이나 보툴리눔 독소 주사가 증상을 호전시키지 못할 경우 심부뇌자극 치료를 시도해 볼 수 있다. 심부뇌자극 치료는 움직임을 조절하는 특정한 뇌의 영역에 전기 자극 발생기와 연결된 작은 전극을 삽입하여 근긴장 이상을 유발할 수 있는 신호들을 방해하며, 그 치료 효과가 몇 주 혹은 수개월에 걸쳐 점진적으로 나타나는 것으로 알려져 있다[10]. 근긴장 이상 외에도 본태성 진전이나 파킨슨병, 강박증에 효과적인 치료법으로 알려져 있으며 약물에 불응하거나 부작용을 보이는 다양한 신경계 질환에서도 시도되고 있으나 섬유근통에 대한 임상 적응이나 치료 성적에 대해서는 알려진 바가 없다. 본 증례의 경우도 심부 뇌자극 치료 이후 통증 정도 및 FIQ 점수가 약간 감소하였으나 이후 수개월간 다시 통증이 이전처럼 반복되는 양상을 보여 섬유근통의 증상은 호전된 것으로 보이지는 않는다.

근긴장 이상의 경우 생명을 위협하는 질환은 아니지만 침범된 근육의 정상적인 운동을 할 수 없고 비정상적인 자세나 움직임으로 인해 기능 장애뿐만 아니라 일상적인 대인 관계 등에서도 지장을 갖게 되는 질환으로, 드물지만 섬유근통과 동반되는 예가 보고되고 있어 내과의로서 발생 가능성을 숙지할 필요가 있으리라 생각된다.

요 약

저자들은 수지의 비수외적 굴곡 구축을 동반한 섬유근통

환자에서 수부 근긴장 이상으로 진단 후 심부뇌자극 치료를 시행하여 호전된 1예를 경험하였다. 국내에서는 아직 섬유근통 환자에 동반된 근긴장 이상이 보고된 바가 없어 이를 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어: 섬유근통; 근긴장 이상; 심부뇌자극 치료

REFERENCES

1. Hallett M. Dystonia: abnormal movements result from loss of inhibition. *Adv Neurol* 2004;94:1-9.
2. Rietveld AB, Leijnse JN. Focal hand dystonia in musicians: a synopsis. *Clin Rheumatol* 2013;32:481-486.
3. Prist V, De Wilde VA, Masquelier E. Dystonic pattern in a fibromyalgia patient: relevance of a biopsychosocial rehabilitation approach. *Ann Phys Rehabil Med* 2012;55:174-189.
4. Cho CB, Park HK, Lee KJ, Rha HK. Thalamic deep brain stimulation for Writer's cramp. *J Korean Neurosurg Soc* 2009;46:52-55.
5. Jinnah HA, Berardelli A, Comella C, et al. The focal dystonias: current views and challenges for future research. *Mov Disord* 2013;28:926-943.
6. Jabusch HC, Müller SV, Altenmüller E. Anxiety in musicians with focal dystonia and those with chronic pain. *Mov Disord* 2004;19:1169-1175.
7. Schmidt A, Jabusch HC, Altenmüller E, et al. Phenotypic spectrum of musician's dystonia: a task-specific disorder? *Mov Disord* 2011;26:546-549.
8. Voon V, Butler TR, Ekanayake V, et al. Psychiatric symptoms associated with focal hand dystonia. *Mov Disord* 2010;25:2249-2252.
9. Karakaş Uğurlu G, Onen S, Bayindirli D, Cayköylü A. Acute dystonia after using single dose duloxetine: case report. *Psychiatry Investig* 2013;10:95-97.
10. Hwang JH, Paek SH, Jeon BS. Deep brain stimulation: mechanism, surgical procedure, and clinical applications. *J Korean Med Assoc* 2013;56:695-701.