

삼차자율신경두통 양상을 보인 외측연수경색

김다영 · 최교민 · 정문영 · 오지영

건국대학교병원 신경과

Lateral Medullary Infarction Mimicking Trigeminal Autonomic Cephalalgia

Dayoung Kim, MD, Kyomin Choi, MD, Moonyoung Jeong, MD, Jeeyoung Oh, MD, PhD

Department of Neurology, Konkuk University Medical Center, Seoul, Korea

KEYWORDS Trigeminal autonomic cephalalgia, Cluster headache, Medulla oblongata

군발두통은 삼차자율신경두통(trigeminal autonomic cephalalgia) 중 하나로, 편측 안와, 안와위 혹은 측두부의 심한 두통과 같은 편 얼굴에 자율신경계 증상이 동반되는 원발 두통이다.¹ 동반되는 자율신경계 증상 혹은 징후로는 부교감신경계 항진을 의미하는 결막충혈, 눈물 혹은 콧물, 코막힘, 이마와 얼굴의 땀 혹은 홍조와 교감신경계 억제와 연관된 동공수축, 눈꺼풀 처짐이 있다. 군발두통은 일시적인 시상하부기능 이상이 원인으로 알려져 있지만 드물게 뇌병변에 의해서도 나타나는데, 이제까지 뇌동정맥기형, 내경동맥박리, 뇌하수체 종양에서 증례가 보고되었다.² 저자들은 외측연수경색의 첫 증상으로 군발두통과 유사한 양상의 통증과 자율신경계 이상 증상과 징후를 보인 환자를 경험하여 보고하고자 한다.

증 례

55세 남자가 4일 전부터 시작된 오른쪽 눈 주위의 극심하게 ‘파는 듯한’ 통증으로 방문하였다. 통증은 오른쪽 이마와 눈 주위 코 안쪽에 국한되어 빠르하게 후비는 양상이었고, 같은 쪽으로 눈물과 콧물이 흘렀다. 코도 먹먹하게

막히는 느낌이었고 오른쪽 눈 주위와 얼굴도 푸석하게 부은 느낌이라고 하였다. 두통은 30분에서 2시간 정도 지속되었으며 하루에도 4-5차례 반복되었다. 심할 때는 자다가도 통증으로 깨기도 하였다. 진통제를 사서 복용하였으나 효과가 없었고, 두통과 함께 걸을 때 몸이 오른쪽으로 쏠리는 느낌이 동반되었다. 환자는 다른 병원 안과와 응급실 두 곳에서 진찰을 받고, 뇌 자기공명영상(magnetic resonance imaging, MRI)도 촬영하였으나 이상 소견은 없이 혈관성 두통이라는 이야기를 들었다고 하였다. 이후 통증이 가라앉지 않고 오른쪽 코 안과 눈에 뜨겁고 터질 것 같은 시각상사척도(visual analogue scale) 10점의 극심한 통증 발작이 하루에도 수회 반복되어 증상 발생 2주 째에 입원하였다. 10년 전 고혈압을, 5년 전에는 당뇨병을 진단받고 약물 복용 중이었고, 그 외 특이 병력은 없었다.

신경학적 진찰에서 오른쪽 눈의 눈꺼풀 처짐, 부종과 결막충혈이 있었고(Fig 1-A), 측동은 보이지 않았다. 안구 운동은 모두 정상 범위였고, 안진은 없었으나 왼쪽으로 머리 기울임(head tilt)이 있었다. 오른쪽 얼굴의 삼차신경 상악분지영역으로 통각이 저하되었다. 다른 뇌신경기능은 정상이었다. 왼쪽 다리에서도 통각이 반대쪽에 비해 40% 가량

Received: December 13, 2017 / Revised: December 16, 2017 / Accepted: December 18, 2017

Address for correspondence: Jeeyoung Oh, MD, PhD
Department of Neurology, Konkuk University Medical Center, 120-1 Neungdong-no, Gwangjin-gu, Seoul 05030, Korea
Tel: +82-2-2030-7564, Fax: +82-2-2030-5169, E-mail: serein@kuh.ac.kr

저하되었으나 진동감각과 위치감각은 정상이었다. 건반사는 상지는 정상이었고, 무릎반사와 발목반사가 항진되었다. 손가락맞대기 검사에서 이상은 없었으나 일자보행 검사에서 오른쪽으로 기우는 양상을 보였다. 안저 검사에서 왼쪽 눈에서 안구회전(cyclorotation)된 것을 확인하였고, 0.5% apraclonidine 점안 검사에서 이상 소견은 보이지 않았다. 두통양상과 자율신경계 증상은 군발두통에 가까웠으나 국소 신경학적 이상 소견을 보여 연수를 침범하는 뇌병변의 의심되었다. 다시 시행한 뇌 확산강조영상과 T2강조 MRI 영상에서 오른쪽 외측 연수에 고신호강도 병변이 확인되었고, 양쪽 추골동맥에 전반적인 죽상경화성 협착이 발견되었다(Fig 1-B). 추골동맥박리나 혈관압박은 보이지 않아 허혈성 뇌경색으로 진단하고 아스피린을 투약하기 시작하였다. 환자의 통증과 자율신경계 이상 증상은 입원 후부터 견딜만한 정도로 호전되기 시작하여 산소 흡입이나 투약 없이 증상 시작 3주만에 완전히 소실되었다. 또, 뇌경색 발생 3년 동안 외래 추적 검사에서도 군발두통 양상의 두통 발생은 더 이상 없었다.

고 찰

뇌경색 환자의 약 12%에서 지속적인 두통이 발생하며 외측연수경색 환자 중 49-65%에서 후두부에 국한된 두통이 발생한다고 알려져 있다.³ 본 증례의 환자의 경우 뇌경색 이후 발생한 두통은 오른쪽 안와 부위와 코 점막에만 국한되어 있어 기존에 보고된 두통과는 다른 양상이었다. 또 안구주위 통증과 함께 같은 쪽 눈꺼풀 처짐과 부

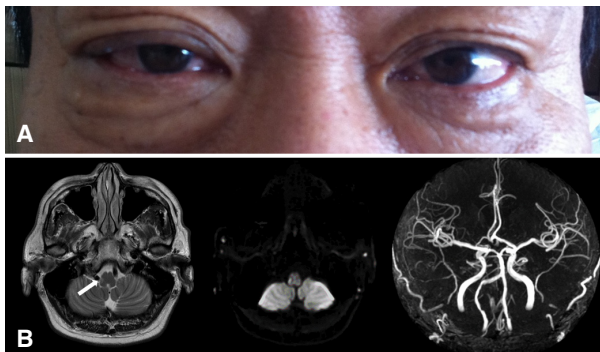


Figure 1. Patient showing right eyelid ptosis, periorbital edema, and conjunctival injection (A) and focal ischemic lesion in the right dorsolateral medulla on the diffusion-weighted and T2-weighted magnetic resonance imaging accompanying irregular atherosclerotic change of bilateral vertebral arteries (B).

종, 결막충혈, 눈물과 콧물, 코막힘이 동반되어 증상만 본다면 군발두통의 첫 발생으로 생각할 수 있었다. 안검하수는 외측연수경색에서 흔히 침범되는 안교감신경섬유(oculosympathetic fiber) 마비로 생각할 수 있지만, 눈꺼풀 부종, 눈물과 콧물, 비충만감은 안면신경에서 기시하는 두개내부교감신경의 과활성을 의미하므로 외측연수경색만으로는 잘 설명되지 않는다.

시상하부는 시상하부척수로(hypothalamospinal tract)를 통해 교감신경과 부교감신경을 통합하는 중추이다. 기능 MRI와 양전자방출단층촬영술(positron emission tomography) 검사를 통해 군발두통 발생 시 시상하부가 활성화됨이 밝혀졌고, 난치성 군발두통에서는 시상하부를 자극함으로써 통증이 감소되는 양상을 보여 시상하부가 매우 중요한 뇌 구조물로 여겨져 왔다.⁴ 최근 군발두통의 통증 발생 기전으로 연주기리듬(circannual rhythm) 변화와 같은 특정 요인에 의해 시상하부의 기능 장애가 유발되고, 이로 인해 뇌간에 위치한 시상하부척수와 삼차신경목복합체(trigemino-cervical complex)가 활성화되는 것으로 알려졌다. 두통에 동반되는 자율신경계 증상은 후시상하부에서 위침분비핵(superior salivary nucleus)을 직접 자극하거나 삼차혈관계의 신경성 염증이 주위 나비입천장신경절(sphenopalatine ganglion)으로 퍼지면서 나타나는 것으로 여겨진다.⁵

Altavilla 등이 발표한 외측연수경색 후에 지연되어 발생한 군발두통 증례에서는 하행교감신경로의 손상에 의해 호너 증후군이 발생하고, 이후 잘못된 신경 전기연접전달(ephaptic transmission)로 인해 삼차혈관계가 과흥분되어 발생한 것으로 제시하였다.⁶ 본 증례의 환자는 뇌경색과 거의 같은 시기에 군발두통 양상이 발생하였기 때문에 잘못된 형성성(maladaptive plasticity)으로는 증상 발생을 설명하기 어렵다. 다른 증례 보고에서는 해부학적으로 하행교감신경로와 위침분비핵이 가까이 위치해있기 때문에 척추동맥의 뇌혈류변화에 따라 부교감신경핵인 위올리브핵이 자극되었거나 교감신경-부교감신경의 불균형에 의해 부교감신경항진 증상이 발생했을 가능성을 제시하였다.⁷ 군발두통에서 부교감활성 증상 없이 두통만 발생하는 경우는 없으나 두통 없이 자율신경계 증상만 보이는 경우는 없으므로 아직까지는 교감신경계손상이 부교감신경계를 상대적으로 활성화하는 것으로 추측된다.⁵ 이러한 점에서 본 증례는 이를 뒷받침하는 예라고 볼 수 있다.

삼차자율신경두통은 드물지만 대부분 기질적인 뇌병변이 없는 경우가 많다. 그러나 본 증례와 같은 외측연수경색을 포함해 내경동맥박리나 시상하부 병변에서도 군발두

통과 유사한 양상의 통증과 자율신경계 증상이 나타날 수 있다.² 군발두통 양상의 통증을 처음 경험한 환자의 약 25%는 평생 더 이상 재발하지 않는다는 보고도 있다.⁵ 이 경우 기질적 원인이 간과되었을 가능성이 있다. 따라서 처음 군발두통과 유사한 두통을 호소하는 환자에게는 자세한 병력 청취와 뇌신경 검사, 정확한 통증 부위 확인이 필요하며, 시상하부병변에서는 다른 신경학적 이상 증상 없이 군발두통 유사증상만 발현될 수 있으므로 첫 발생 시에는 적절한 영상 검사가 필요하다고 할 수 있다.

REFERENCES

1. May A. Diagnosis and clinical features of trigemino-autonomic headaches. *Headache* 2013;53:1470-1478.
2. Cittadini E, Matharu MS. Symptomatic trigeminal autonomic cephalalgias. *Neurologist* 2009;15:305-312.
3. Hansen AP, Marcussen NS, Klit H, Kasch H, Jensen TS, Finnerup NB. Development of persistent headache following stroke: a 3-year follow-up. *Cephalalgia* 2015;35:399-409.
4. Iacovelli E, Coppola G, Tinelli E, Pierelli F, Bianco F. Neuroimaging in cluster headache and other trigeminal autonomic cephalalgias. *J Headache Pain* 2012;13:11-20.
5. Hoffman J, May A. Diagnosis, pathophysiology, and management of cluster headache. *Lancet Neurol* 2017 Nov 23. pii: S1474-4422(17)30405-2. [Epub ahead of print]
6. Altavilla R, Landi D, Altamura C, Bussone G, Maggio P, Corbetto M, et al. Dorsolateral medullary ischemic infarction causing autonomic dysfunction and headache: a case report. *J Headache Pain* 2012;13:327-330.
7. Cid CG, Berciano J, Pascual J. Retro-ocular headache with autonomic features resembling "continuous" cluster headache in lateral medullary infarction. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2000;69:134.