

# 1형 복합국소통증증후군에 병발한 하지불안증후군

인제대학교 의과대학 부산백병원 신경과학교실, 한림대학교 의과대학 한강성심병원 마취통증의학교실<sup>1</sup>

박강민 · 김상진 · 배종석 · 우철호<sup>1</sup>

## Restless Legs Syndrome developed from Complex Regional Pain Syndrome Type 1

Kang Min Park, M.D., Sang Jin Kim, M.D., Jong Seok Bae, M.D., Chul Ho Woo, M.D.<sup>1</sup>

*Department of Neurology, Inje University College of Medicine, Busan, Korea;  
Department of Anesthesiology, Hallym University College of Medicine, Seoul, Korea<sup>1</sup>*

The pathomechanisms involved in both restless legs syndrome (RLS) and complex regional pain syndrome type I (CRPS I) are still controversial whether they are central or peripheral origins. We recently encountered a patient who had an unusual coexistence of both RLS and CRPS I, and both of which showed good responses to sympathetic block. These findings suggest the role of peripheral mechanisms, especially unmyelinated small autonomic fiber, in both RLS and CRPS I.

**Key Words:** Complex Regional Pain Syndrome, Restless Leg Syndrome, Peripheral Nerve

하지불안증후군(restless legs syndrome; RLS)의 병인은 현재까지 논란의 여지가 많고 중추성과 말초성 병인 각각에 대한 다양한 가설이 제시되었다.<sup>1-4</sup> 복합국소통증증후군(complex regional pain syndrome; CRPS) 역시 확실한 병인은 알려져 있지 않고 중추신경계와 말초신경계를 모두 침범하는 전신질환으로 이해되고 있다.<sup>5,6</sup>

최근 저자들은 1형 CRPS 환자에서 RLS가 병발된 경우를 경험하게 되었고 CRPS의 치료로서 교감신경차단술 후에 환자의 RLS가 극적으로 동시에 호전된 경험을 하게 되었다. 저자들은 상기 증례에 대한 병태생리적 설명을 위해 RLS와 1형 CRPS 모두에서 제시된 바 있는 말초성 원인의 병인에

대해서 문헌고찰을 하였고 이를 통해서 본 증례의 임상적 의미를 제시하고자 한다.

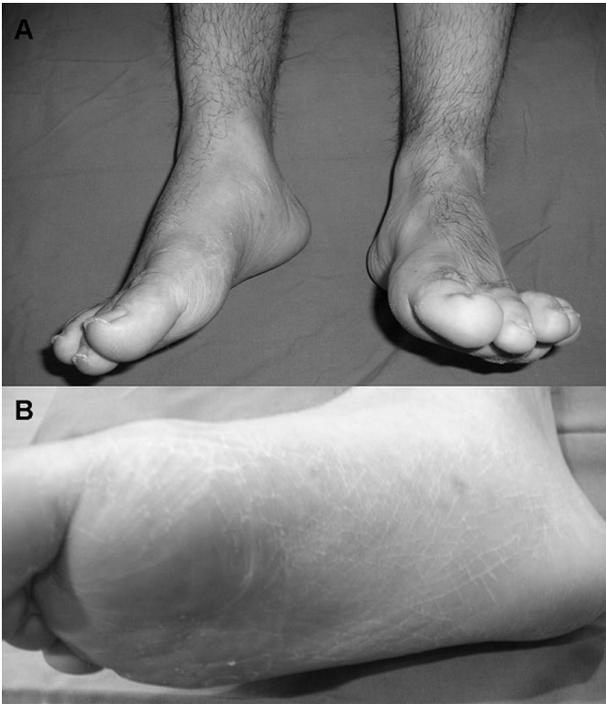
### 증례

24세 남자가 약 5개월 전부터 발생한 오른쪽 다리의 간헐적인 칼로 찌르는 듯한 통증과 이상감각 및 부종을 주소로 외래를 방문하였다. 내원 당시 증상은 발이 지면에 닿으면 증상이 악화되고, 이질통이 심하여 목발을 짚고 있었으며 이로 인하여 약 4개월간 부목을 착용하고 지내고 있었다. 환자는 군인인데 내원 약 5개월 전 약 1시간 동안 연병장에서 심하게 포복을 하고 난 수일 후부터 통증이 시작되었고 점차 오른쪽 발등이 붓고 털이 빠지며 땀이 잘 안났다고 하였다. 부대 내에서 진통제와 파스 등으로 치료를 하며 지냈으나 증상은 점차 심해졌다. 증상 시작 약 2주 후부터 오른쪽 발가락 부위로 말로 묘사하기 힘든 특이한 불편감과 다리를 움직이고 싶은 절박감이 거의 매일 특히 밤에 잠이 들 무렵 발생하였으며 다리를 움직여 주면 호전되는 경험을 반복하였다.

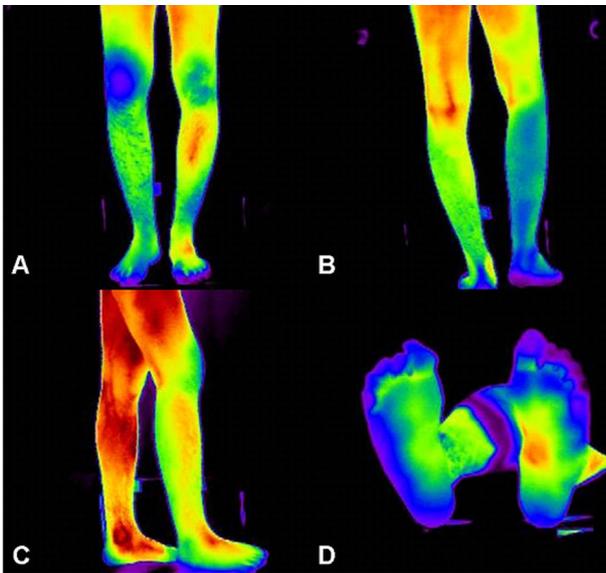
Address for correspondence;

**Jong Seok Bae, M.D.**

Department of Neurology, Busan Paik Hospital, Inje University  
633-165, Gaegeum-dong, Busanjin-gu, Busan, 614-735, Korea  
Tel: +82-51-890-6148 Fax: +82-51-895-6367  
E-mail: lwsbae@naver.com

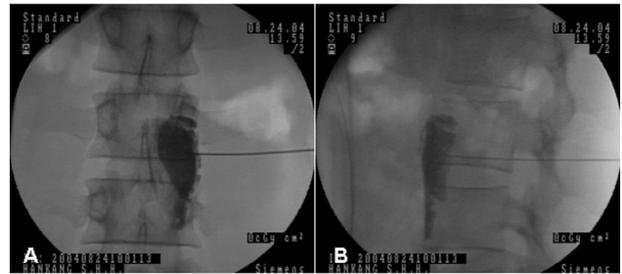


**Figure 1.** Pictures of the patient. Dorsum of right foot shows quantitative and qualitative decrease of hair (A), desquamative and dystrophic skin features (B).



**Figure 2.** Thermography. These revealed the apparent difference of the surface temperature between right and left leg : Anterior (A), posterior (B), lateral (C), and sole view (d). Color distribution of right leg reflects a relatively low temperature than left side.

환자는 심한 이질통 때문에 다리를 움직이거나 앉기 또는 걷



**Figure 3.** Sympathetic block on second lumbar level. Fluoroscopic images of anterior- posterior view (A), and lateral view (B) revealed dye diffusion along the sympathetic trunk of the patient.

기를 힘들어했으나 저녁에 위의 증상이 발생하면 이 증상의 개선을 위해 앉아 있거나 걷는 일이 생겼다. 그 이후로 수면 중 오른쪽 발목 무릎 관절의 갑작스러운 심한 근육간대경련성 굴곡운동이 발생하여 본인과 옆자리에서 취침 중인 동료를 깨우는 일이 빈번하였고 이로 인해 숙면을 취하기 어려웠다. 과거력, 가족력이나 사회력에서 특이 사항은 없었으며 특별한 외상이나 수술력도 없었다.

신체검사상 오른쪽 발등과 발바닥 피부가 청색증(cyanosis)을 띄고 표피박리(desquamation)가 진행된 소견이 확인되었고 이환부위의 체모가 정상부위에 비하여 숫적으로나 질적으로 떨어지는 소견을 보였다(Fig. 1). 신경학적진찰상 오른쪽 발등과 발바닥에서 갈로 찌르는 듯한 또는 타는 듯한 심한 통증 외에도 통각과민과 이질통이 감각검사에서 확인되었으며 근력검사나 DTR은 정상이었다. 그 외에 간헐적으로 발생하는 오른쪽 발목의 떨림이 관찰되었는데 불수의적으로 발생하였고 발을 손으로 잡으면 멈추는 양상을 보였으며 떨림이 발생하는 기간이나 발생 간격에는 일정한 양상이 없었다.

저자들은 임상적으로 1형 복합국소통증증후군과 이와 동반된 하지불안증후군과 주기사지운동증후군(periodic limb movement syndrome)의 가능성을 생각하였다. 적외선체열 진단검사를 하였고 검사 결과에서 오른쪽 다리가 왼쪽보다 섭씨 1.11-2.13의 낮은 온도를 보여 오른쪽 다리의 한선기능이 저하된 소견이 의심되었다(Fig. 2). 주기사지운동증후군(periodic limb movement syndrome)의 진단을 위해 수면 다원검사를 하려고 하였으나 환자의 거부로 할 수 없었다. 중재적 치료로서 허리교감신경차단을 L2위치에서 하였다(Fig. 3). 교감신경차단 후 1일째 오른쪽 발의 부종이 감소하고 이상감각의 빈도와 강도가 현저하게 감소하였다. 매일 잠들 무렵 발생하였던 증상 역시 교감신경차단 후에는 나타나지 않았다. 이후 신경병증성 통증에 대한 약물치료를 시작하

였고 다시 교감신경차단을 시도를 고려하였으나 군인인 신분상의 문제로 부대에 복귀 후 약물치료만을 하였고 약 6개월 동안 더 이상의 재발은 없었다.

## 고 찰

RLS와 CRPS는 비교적 근래에 병의 개념과 속성이 알려지기 시작한, 아직 명확한 병태생리기전이 알려지지 않은 증후군들이다. RLS의 병태생리기전에 대한 많은 가설 중에서 말초신경질환과 연관된 많은 보고들은 말초신경병증과 신경뿌리병증이 이차 RLS의 비교적 흔한 원인일 가능성을 시사하고 있다.<sup>3,7</sup> 근래에는 말초신경병증에서도 특히, 세섬유신경병증과 연관된 RLS에 대한 보고가 있었으며 피부생검을 통한 세섬유 병변의 직접 확인과 임상적으로도 구분되는 특징들을 제시하였다. 즉, 세섬유신경병증과 연관된 RLS는 증상시작 연령이 더 높고 동통을 동반한 양성 감각 증상이 더 빈발하는 특징을 보였다.<sup>4</sup> CRPS의 말초성 병태생리기전을 시사하는 보고 중에서도 교감아드레날린성(sympathoadrenergic), 교감콜린성(sympathocholinergic), 그리고 무수신경인 동통지각신경섬유의 이상을 병리학적으로 직접 확인하고 이와 연관된 특징적인 세섬유 증상이 존재한 근래의 보고가 있다.<sup>6</sup>

CRPS의 치료법 중 하나로 교감차단술은 이론적 근거와 효과검증 면에서 많은 논란이 있는 것이 사실이나 근래까지 국내외에서 빈번하게 이용되는 CRPS의 치료 양식 중의 하나이다.<sup>8</sup> 교감차단술을 이용한 CRPS 치료의 이론적 근거로는 CRPS 병태생리 중에서 교감신경계가 차지하는 비중 면에서 효과가 설명되는데 대표적으로 교감 신경전달물질과 아드레날린수용체의 일차동통구심신경에 대한 혼선(crosstalk), 교감신경전달물질의 동통유발물질 생성의 촉진, 및 아드레날린초과민증(supersensitivity) 등을 들 수 있다. 즉, 교감차단은 이러한 교감매개 기전들을 약리적으로 차단함으로써 CRPS의 증상을 개선한다는 것이다.

RLS의 증상은 수면각성주기뿐만 아니라 운동감각기능에 따라서 증상의 양상과 강도가 다양하게 존재한다. 지역사회를 대상으로 조사한 RLS와 심리적, 신경학적, 체성 요소들과의 연관성에 대한 연구는 많은 다양한 인자들이 RLS와 연관이 있음을 제시하였다. 특히, 이전부터 잘 알려진 수면질환 외에도 심혈관계질환, 성질환과 같은 자율신경계 이상의 대응 비(odds ratio)가 높은 것으로 나타났다.<sup>2</sup> 이는 RLS와 자율신경계 이상과의 연관성을 시사하는 것보다는 RLS로

인한 수면장애가 야기하는 이차성 전신질환의 발현일 가능성이 높으나 RLS의 다양한 증상과 병태생리기전 중에서 자율신경계가 RLS의 임상상과 병태생리에 어떠한 역할을 하는지 연구해 볼만한 주제이다.

본 증례의 환자는 이전에 한 번도 경험한 바 없는 하지 불편감과 움직임에 대한 절박감 및 움직임 후의 호전을 CRPS 후에 경험하게 되어 CRPS또는 CRPS의 병태생리기전과 연관된 이차성 RLS의 가능성을 생각하게 되었고 CRPS의 치료 양식으로 시행한 교감차단이 환자의 증상을 극적으로 호전시킴으로써 자율신경계와 연관된 두 질환의 공통적인 병태생리적 요소의 중요성을 시사해 주고 있다. 저자들은 이러한 요소로서 두 질환 모두에서 중요한 병태생리적 인자로서 세섬유 특히, 자율신경섬유의 역할을 생각하였고 세섬유신경병증이 RLS와 CRPS 모두에서 병태생리학적으로 중요한 요소일 가능성에 대한 문헌고찰과 설명을 시도해 보았다. 하지만 이를 객관적으로 뒷받침할 검사들인 신경전도검사나 자율신경계검사를 하지 못한 점은 본 증례의 한계점이 되겠다.

## REFERENCES

1. Allen RP, Earley CJ. Restless legs syndrome: a review of clinical and pathophysiologic features. *J Clin Neurophysiol* 2001;18:128-147.
2. Ulfberg J, Nystrom B, Carter N, Edling C. Prevalence of restless legs syndrome among men aged 18 to 64 years: an association with somatic disease and neuropsychiatric symptoms. *Mov Disord* 2001;16:1159-1163.
3. Rutkove SB, Matheson JK, Logigian EL. Restless legs syndrome in patients with polyneuropathy. *Muscle Nerve* 1996;19:670-672.
4. Polydefkis M, Allen RP, Hauer P, Earley CJ, Griffin JW, McArthur JC. Subclinical sensory neuropathy in late-onset restless legs syndrome. *Neurology* 2000;55:1115-1121.
5. Janig W, Baron R. Complex regional pain syndrome: mystery explained? *Lancet Neurol* 2003;2:687-697.
6. van der Laan L, ter Laak HJ, Gabreels-Festen A, Gabreels F, Goris RJ. Complex regional pain syndrome type I (RSD): pathology of skeletal muscle and peripheral nerve. *Neurology* 1998;51:20-25.
7. Gorman CA, Dyck PJ, Pearson JS. Symptom of Restless Legs. *Arch Intern Med* 1965;115:155-160.
8. Boas RA. Sympathetic nerve blocks: in search of a role. *Reg Anesth Pain Med* 1998;23:292-305.