

Case Report

# 경부 척수허혈에 의해 발생한 통속사람증후군 1예

동아대학교 의과대학 신경과학교실<sup>1</sup>, 영상의학교실<sup>2</sup>

윤별아<sup>1</sup> · 김종국<sup>1</sup> · 하동호<sup>2</sup>

## A Case of Man-in-the-Barrel Syndrome Induced by Cervical Spinal Cord Ischemia

Byeol A Yoon<sup>1</sup>, Jong Juk Kim<sup>1</sup>, Dong Ho Ha<sup>2</sup>

Departments of <sup>1</sup>Neurology and <sup>2</sup>Radiology, Dong-A University College of Medicine, Busan, Korea

Man-in-the-barrel syndrome (MIBS) is a clinical syndrome of bilateral upper limb weakness with normal lower extremity function. It can be caused by various neurological conditions such as bilateral cerebral hypoperfusion, syringomyelia, motor neuron disease, or cervical myelopathies. We report a patient with MIBS after cervical spinal cord ischemia. It is postulated to be caused by ischemic insults of anterior spinal artery from repeated and prolonged neck extension.

**Key Words:** Man-in-the-barrel syndrome, Spinal cord ischemia, Neck

Received 17 October 2012; received in revised form 15 April 2013; accepted 10 December 2013.

통속사람증후군(man-in-the-barrel syndrome, MIBS)은 양측 하지의 기능은 보존되면서 상지에만 국한된 근력저하가 대칭적으로 나타나는 현상을 말하는 것으로서 마치 사람이 원통 안에 들어가 있어 팔을 자유롭게 사용하지 못하는 것과 같은 경우를 일컫는다. 이러한 임상적 특징 때문에 통속사람증후군이란 용어는 양측 위팔마비를 일으킬 수 있는 여러 질환들을 통칭하기도 하고 혼용하여 사용되기도 한다.

MIBS는 1917년에 Dide와 Lhermitte가 경추 부위의 척수 손상을 입은 증례에 관해 기술하면서 처음 보고하였고, 이후 경수 손상, 운동신경세포병, 신경계 감염, 종양의 뇌전

이, 두부 외상, 다발성경화증 등 다양한 원인들에 의해 유사한 현상이 나타날 수 있다는 사실이 알려졌다.<sup>1,3</sup> 또한 광범위한 뇌의 허혈 손상에서 생존한 이후 후유증으로 MIBS이 발생할 수 있다.<sup>4</sup> 이들 외에 경추 부위에서의 허혈성 척수 손상에 의해서도 MIBS와 유사한 현상이 나타날 수 있어서, 원인을 감별할 때 고려하여야 한다.<sup>5</sup>

저자들은 갑자기 발생한 MIBS 환자에서 그 원인이 반복적이고 지속적인 목의 신전에 의한 척수의 허혈성 손상 일 것으로 추정되는 예를 경추부위 자기공명영상 소견과 함께 보고한다.

### 증 례

42세 남자가 갑자기 발생한 양 팔의 근력저하를 주소로 응급실에 왔다. 건축현장에서 도장공 일을 주로 하였으며 증상 발생 수일 전부터 천정 작업을 위해 장시간 동안 목이 과신전한 상태에서 일하였다고 한다. 특히 증상이 발생

Address for correspondence;

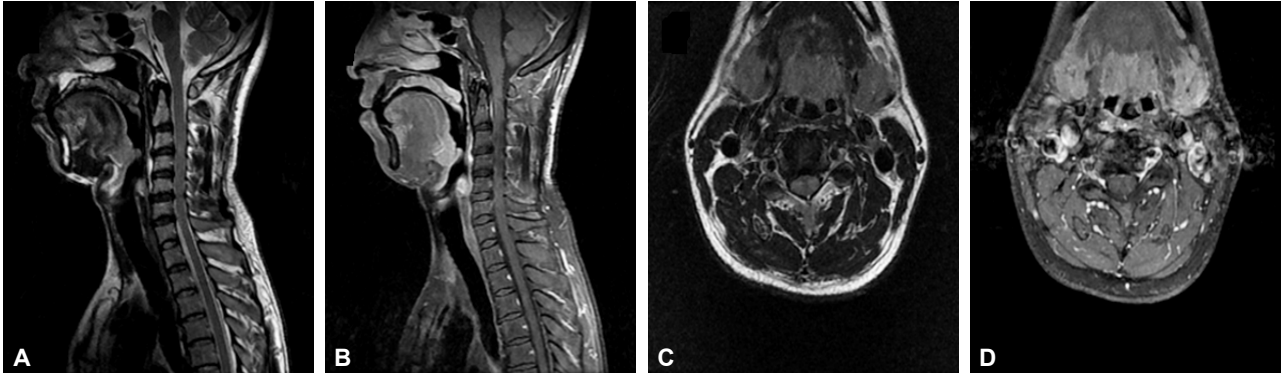
Jong Kuk Kim

Department of Neurology, Dong-A University College of Medicine,

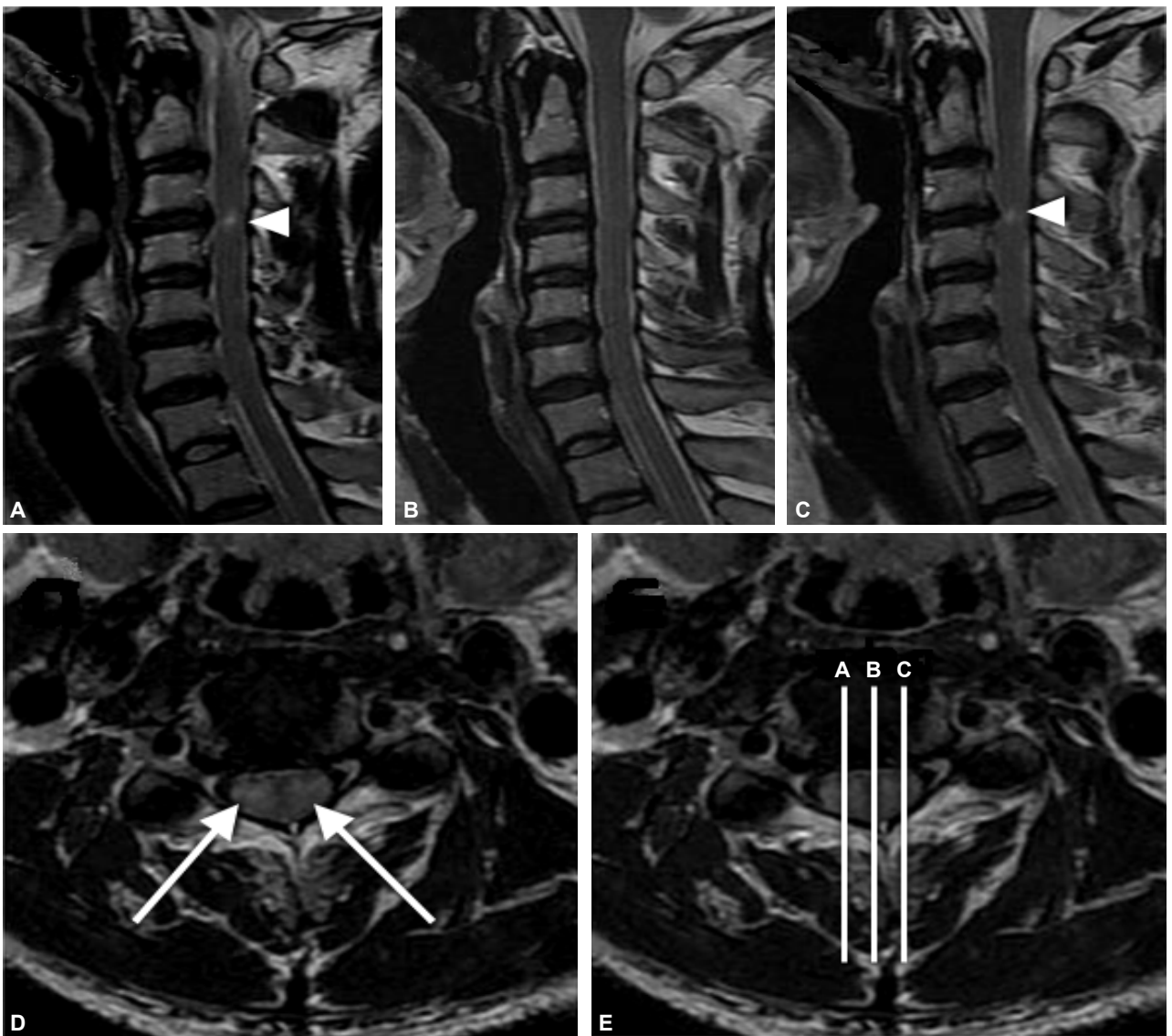
26 Daesingongwon-ro, Seo-gu, Busan 602-715, Korea

Tel: +82-51-240-5260 Fax: +82-51-244-8338

E-mail: advania9@chol.com



**Figure 1.** Cervical spinal MRI one day after the onset shows compressed cord at C3-4 and C4-5 by bulging disc without prominent signal changes in T2-weighted (A and C) and T1-weighted enhanced images (B and D).



**Figure 2.** Follow up cervical cord MRI 17 days after the onset shows increased signal intensities in T2-weighted images (A and C, arrow heads) as “eyes of owl” pattern (D, arrows).

한 당일에는 천정을 보며 목을 신전한 상태로 하루 종일 일을 했으며, 일을 마친 직후 심한 통증을 동반한 팔의 근력 저하를 호소하였다.

입원 시 시행한 신경학적 검사에서 양측 상지의 근력이 Medical Research Council (MRC) 등급 기준으로 근위부는 3-4, 원위부는 2 정도로 대칭적으로 저하되어 있었고, 이에 반해 양측 하지의 근력은 정상으로 유지되었다. 양측 상지에 국한된 표재성 감각 저하와 이상감각(dysesthesia) 및 이질통증(allodynia)이 동반되었다. 두갈래근반사와 위팔노근반사는 소실되었고, 세갈래근반사는 정상이었으며 하지의 심부건반사는 항진된 양상이었다. Hoffmann 징후와 Trömner 징후는 양성이었다. 진동각을 포함한 심부감각은 정상이었으나 경미한 가성무정위운동증(pseudoathetosis)이 관찰되었다. 배뇨장애, 발한이상이나 기립성 어지럼증 등의 자율신경계 이상을 시사하는 증상은 없었다. 뇌척수액검사에서 백혈구, 단백질 및 당은 정상범위였다.

증상 발생 6시간만에 촬영한 뇌 MRI에서는 이상이 없었다. 다음날 시행한 경추 MRI에서 경추 3-4번과 4-5번 사이의 탈출된 추간판이 척수 전방을 압박하는 병변이 있었으며, 제3 경추와 제4 경추 사이의 경수에서 양쪽 회색질 내에 경미한 고신호강도 변화가 T2 강조영상에서 관찰되었고, T1 강조영상에서는 조영증강되지 않았다(Fig. 1). 내원 16일째 추적검사를 시행하였다. 이 때의 T2 강조 영상에서는 첫 시행 시 뚜렷하게 보이지 않았던 회색질 내의 양측 병변이 뚜렷한 고신호강도로 변화된 것이 확인되었으나 역시 조영증강되지는 않았다(Fig. 2). 내원 2일째에 시행한 정중신경 및 후정골신경의 감각신경유발전위 검사는 정상이었다.

지속적이고 반복적인 목의 과신전에 의한 추간판 탈출증 및 이에 의한 전척수동맥 압박으로 발생한 급성 경수경색증으로 판단하였다. 저분자하파린 피하주사와 스테로이드 정주 용법(dexamethasone 10 mg for 6 days)을 하였고 목운동 제한을 하여 환자의 증상은 빠른 속도로 호전되었다. 치료 일주일 경과 후 감각 이상과 통증은 거의 소실되었고, 근력도 서서히 회복되는 경과를 보였다. 한 달 뒤에는 대부분의 근력이 정상으로 회복되었다.

## 고 찰

Schneider 등<sup>6</sup>은 경부 척수 손상에 의해 MIBS의 징후가 발생할 수 있다는 사실을 최초로 보고하였는데, 목을 과신전한 상태가 되면 척수는 앞쪽에 위치하는 뼈결돌기(osteophyte)에 의해 뒤쪽으로는 비후된 황색인대에 의해 압박되고 척수 내에 출혈과 괴사가 일어나며 이차적으로 신경손상이

이 유발된다고 추정하였다. 이들은 걸질척수로를 따라 신경손상이 나타나 근력저하와 같은 증상이 유발되며 이러한 병리적 병변이 전각세포를 침범하면 하부운동뉴런의 이상 증상이 나타나는 것으로 설명하였다. Schneider 등<sup>6</sup>의 이러한 가설은 직접적인 압박에 의한 척수의 손상이 걸질척수로에 국한되기 힘들다는 점에서 설명의 한계가 있으나 경추의 외상에 의해 MIBS와 유사한 증상이 나타날 수 있음을 제시했다는 점에서 의의가 있다.

척수경색에 의해서도 MIBS가 생길 수 있는데, 이들은 척추동맥의 박리 등에 의해 이차적으로 전척수동맥의 허혈성 변화가 동반되어 발생하는 것으로 알려져 있다.<sup>5,7</sup> 본 증례의 경우 통증과 이상감각증을 동반한 급성으로 발생한 양팔에 국한된 근력저하가 주된 증상으로서, 이를 설명할 수 있는 병변이 MRI에서 확인된 예이다. 증상이 매우 급작스럽게 나타난 발생 양상을 고려할 때 척수염과 같은 염증성 질환은 가능성이 낮을 것으로 판단하였다. 상지에 국한된 운동 및 감각 이상이 관찰되었으며, 상대적으로 심부감각이 보존되는 것에 반해, 표재감각의 이상이 두드러지는 것을 고려할 때, MRI에서 척수의 양측 앞쪽에 주된 병변이 확인된 것은 임상 소견과도 부합된다. 이러한 증상을 유발할 수 있는 해부학적 위치는 전척수동맥에 의해 혈류를 공급받는 척수의 영역에 해당하며, 경추 3-4번 사이는 양측 척추동맥이 만나 전척수동맥이 시작하는 부분이므로 전척수동맥의 허혈성 변화가 주된 문제임을 시사한다.

MIBS는 매우 드문 현상이다. 특히, 척수경색의 경우 일반적인 MRI에서 확인하기가 쉽지 않고, 확산강조영상의 신뢰도가 낮기 때문에 증명하기가 곤란할 것이다. 본 환자의 경우처럼, 초기 MRI에 비해 수 주가 경과한 후에 더 두드러진 병변을 보이는 점을 합리적으로 설명하는 데는 제한이 있다. 또한 측부 순환이 매우 발달한 것으로 알려진 척수의 경색을 증명하는 데는 혈관 조영술과 같은 좀 더 정밀한 검사가 필요하며, 동시에 주변 혈관의 이상 유무를 확인해야 할 것이다. 그러나 갑자기 증상이 나타나 서서히 조금씩 호전되었던 발생 및 진행 양상, 혈관의 분포 영역에 일치하며 특정 척수 위치에 국한된 신경학적 이상 등을 근거로 척수의 허혈성 변화에 의해 MIBS이 유발되었을 것으로 추정하였다.

척수의 경색이나 허혈성 손상을 야기하는 것들 중 매우 드문 예에 해당하지만 그 병태생리적 현상이 비교적 잘 밝혀져 있는 것 중 하나가 섬유연골색전증(fibrocartilaginous embolism)이다.<sup>8</sup> 경미한 척추의 외상이나 반복적인 목의 운동 또는 과신전과 같은 상황이 척추의 뼈를 지지하는 섬유연골을 손상시켜 이로부터 색전이 유리되게 만들고 이

색전이 척수동맥을 따라 유입되어 경색을 유발한다는 것이다.<sup>9</sup> 이는 혈관질환의 뚜렷한 위험인자가 없는 활동적인 젊은 사람에서 척수경색, 특히 전척수동맥 영역의 경색을 시사하는 증상이 나타났을 때 생각해 볼 수 있는 유력한 발병기전 중 하나이다.

본 증례 역시 혈관질환이 발생할 수 있는 위험요인이나 가족력이 없고, 목을 장시간 반복적으로 과신전한 상태에서 작업을 해 온 젊은 남자에게서 발생하였으므로, 섬유연골색전증에 의한 척수경색일 가능성이 있지만, 영상학적인 검사만으로 확진 할 수는 없었다. 다양한 원인에 의해 발생하는 급성척수질환을 적절히 감별진단하기 위해서는 여러 가지 가능성을 고려하고 그 병태생리를 이해하려고 노력하는 것이 필요하다. 특히 비록 드물지만 MIBS과 같은 특징적인 증상을 보이는 증례에 대한 고찰은 추후 유사한 상황을 경험하게 될 임상 의들에게 중요한 정보를 제공할 것으로 생각한다.

## REFERENCES

1. Orsini M, Catharino AM, Catharino FM, Mello MP, Freitas MR, Leite MA, et al. Man-in-the-barrel syndrome, a symmetrical proximal brachial amyotrophic diplegia related to motor neuron diseases: a survey of nine cases. *Rev Assoc Med Bras* 2009;55: 712-715.
2. Crisostomo EA, Suslavich FJ. Man-in-the-barrel syndrome associated with closed head injury. *J Neuroimaging* 1994;4:116-117.
3. Vainstein G, Gordon CR, Gadoth N. HTLV-1 associated motor neuron disease mimicking "Man-in-the-Barrel" syndrome. *J Clin Neuromuscul Dis* 2005;6:127-131.
4. Sage JI, Van Uitert RL. Man-in-the-barrel syndrome. *Neurology* 1986;36:1102-1103.
5. Berg D, Mullges W, Koltzenburg M, Bendszus M, Reiners K. Man-in-the-barrel syndrome caused by cervical spinal cord infarction. *Acta Neurol Scand* 1998;97:417-419.
6. Schneider RC, Cherry G, Pantek H. The syndrome of acute central cervical spinal cord injury; with special reference to the mechanisms involved in hyperextension injuries of cervical spine. *J Neurosurg* 1954;11:546-577.
7. Ben Sassi S, El Euch G, Regaieg A, Mabrouk T, Zouari M, Ben Romdhane N, et al. Man-in-the-barrel syndrome with combination of infarctions in the anterior spinal artery and posterior inferior cerebellar artery territories. *Cerebrovasc Dis* 2009;27:201-202.
8. Piao YS, Lu DH, Su YY, Yang XP. Anterior spinal cord infarction caused by fibrocartilaginous embolism. *Neuropathology* 2009;29:172-175.
9. Han JJ, Massagli TL, Jaffe KM. Fibrocartilaginous embolism-an uncommon cause of spinal cord infarction: a case report and review of the literature. *Arch Phys Med Rehabil* 2004;85: 153-157.