대한간질학회지 2003;7(1):48-50

Ictal Spitting을 보이는 열성 반구 측두엽 간질 환자 3례

주종규[1] · 허 경[1] · 주민경[1] · 이미희[1] · 박수철[1] · 이병인[1] · 장진우[2]

연세대학교 의과대학교 신경과학교실,[1] 신경외과학교실[2]

Three Patients with Nondominant Temporal Lobe Epilepsy Showing Ictal Spitting

Chong Kyu Chu, M.D.[1], Kyoung Heo, M.D.[1], Min-Kyung Chu, M.D.[1], Mi Hee Lee, M.D.[1], Soo Chul Park, M.D.[1], Byung In Lee, M.D.[1] and Jin Woo Chang, M.D.[2]

Departments of Neurology,[1] and Neurosurgery,[2] Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Spitting as an ictal phenomenon has rarely been reported. It is considered to indicate a seizure onset in the nondominant temporal lobe. Three cases with ictal spitting were found in 81 consecutive patients who underwent temporal lobe resections due to intractable temporal lobe epilepsy. Two had evidence of the right temporal ictal onset. One had the left temporal ictal onset, but the Wada test demonstrated language dominance in the right hemisphere. Three all had mesial temporal sclerosis. One had recollection of her episodes of spitting with a gustatory aura, whereas the other patients had no awareness of this symptom. These cases support previous studies suggesting that spitting is a lateralizing sign to nondominant temporal lobe epilepsy. (J Korean Epilep Soc 2003;7(1):48-50)

KEY WORDS : Ictal spitting · Nondominant temporal lobe · Temporal lobe epilepsy.

복합 부분 발작의 자동증 중 침뱉기(spitting)는 드물게 보고되어 왔다. 1972년 Hecker 등[1]이 처음 보고하였으며 이후 1994년 Fakhoury 등[2]이 역시 우측 측두엽에서 간질 발작이 시작되면서 발작중 침뱉기(ictal spitting)를 보이는 경우를 보고한 바 있다.

이러한 보고들은 발작중 침뱉기가 열성 반구 측두엽에서 시작된 발작을 의미하며 침뱉기가 임상적인 증상으로서 난치성 측두엽 간질의 측위화(lateralization) 증후임을 시사해 준다. 이에 저자들은 본원에서 측두엽 절제술을 시행받은 81명의 측두엽 간질 환자 중에서 3명의 환자에서 발작중 침뱉기를 보이면서 모두 내측 측두엽 해마 경화 소견을 가지고 열성 반구측두엽에서 간질 발작이 시작된 증례들을 경험하였고, 국내에는 아직 이에 대한 보고가 없어서 이를 보고한다.

Received 27 March 2003
Accepted 11 April 2003
Corresponding author: **Kyoung Heo, M.D.**, Department of Neurology, Yonsei University College of medicine, Severance Hospital, 134 Sinchon-dong, Seodaemun-gu, Seoul 120-752, Korea
E-Mail: kheo@yumc.yonsei.ac.kr

증 례

증 례 1 :

20세 남환으로 난치성 간질로 본원 신경과에 내원하였다. 환자는 생후 6개월경에 뇌염을 앓은 병력이 있었고 이후 별다른 증상없이 지내던 중 16세에 간질발작이 시작되었다.

환자의 간질발작 빈도는 항경련제 투여 중에도 한 두달에 1번 정도이고 육체적 또는 정신적으로 힘든 경우에 일주일에 2~3번 정도 간질발작이 일어났다. 전조증상으로 기시감(deja vu)을 호소하였고, 발작중(ictal) 증상(semiology)에서 무의지적인 주시, 구강하악 자동증, 침뱉기, 오른쪽 팔의 자동증, 간질 발작 시 왼쪽 팔의 근긴장 이상성 자세를 보였다. 발작 시 침뱉기는 비디오-뇌파(두피-접형 전극) 감시 장치에서 열성 반구 측두엽에 theta 또는 delta파와 같은 서파가 관찰되면서 발작 시작 후 5~6초 내외의 초기에 보였다. 뇌자기공명영상에서는 우측 측두엽의 해마 경화 소견이 나타났다. 입원 중 시행한 뇌 양전자방출단층촬영(positron emission tomography)에서

뇌 우측 측두엽 영역의 대사가 감소하였고 침뱉기 동안에 발작중 뇌 단일광자방출단층촬영(single photon emission computerized tomography)에서는 우측 측두부에 관류의 증가소견이 보였다. 비디오-뇌파(두피-접형 전극) 감시 장치에서 발작간(interictal) 간질파가 우측 측두엽에서 100% 관찰되었고 발작 중 간질파도 우측 측두엽에서 시작되었다. Wada 검사(intracarotid amobarbital test)에서는 언어 우성 반구가 좌측 반구로 판정되었고 기억 능력에서 왼쪽 주사시 10점 중 2점, 오른쪽 주사시 10점 만점으로 나타났다. 우측 내측두엽 절제술을 시행 받았고 병리 소견상 해마 경화가 나왔다. 수술후 2년간 외래 추적 관찰 중 항경련제는 복용중이며 아직까지 발작은 없었고 2~3달에 1번 정도 전조 증상인 기시감만 호소하였다.

증 례 2 :

30세 여환으로 과거력상 2세경에 지속적인 열성 경련(prolonged febrile convulsion)이 있었다. 8세부터 발작을 시작하였고 타병원에서 간질로 진단받고 항경련제 복용하면서 지내오던 분으로 1달에 2~3번 빈도로 간질 발작이 잘 조절되지 않아 수술적 치료 위해 본원으로 전원되었다. 전조증상으로 어지러움, 공포감, 오심, 쓴맛이 있고 다유연(hypersalivation)을 느끼면서 본인의 의지로 침뱉기를 하고 이후 구강하악 자동증, 과운동 행동(hypermotor behavior), 때때로 발작 중 말하기(ictal speech)나 오른쪽 팔에서 근긴장 이상성 자세를 보였다. 발작 시 침뱉기는 비디오-뇌파(두피-접형 전극) 감시 장치에서 열성 반구 측두엽의 theta 또는 delta파와 같은 서파가 관찰되면서 발작 시작 후 10초 내외의 초기에 보였다. 뇌자기공명영상에서는 좌측 측두엽의 해마 경화 소견이 나타났으며 뇌 양전자방출단층촬영에서는 좌측 측두엽의 대사 감소와 침뱉기 동안의 발작중 뇌 단일광자방출단층촬영은 좌측 측두엽의 관류 증가 소견이 나왔다. 비디오-뇌파(두피-접형 전극) 감시에서 발작간 간질파가 좌측 측두엽에서 100% 관찰되었고 발작 중 간질파도 좌측 측두엽에서 시작되었다. Wada 검사에서는 언어 우성 반구가 우측 반구였고 기억 능력에서 왼쪽 주사시 10점 중 8점, 오른쪽 주사시 10점 중 3점으로 나타났고 좌측 측두엽 절제술을 시행 받았으며 병리 소견상 해마 경화가 나왔다. 수술후 1년 6개월 외래 추적 관찰 동안 항경련제 복용 중이며 수술전과 비교시 발작은 없었으며 가끔씩 피곤할 때 공포감이나 어지러움의 전조증상만 호소하였다.

증 례 3 :

39세 남환은 과거력상 특이소견 없었던 사람으로 13세 경부터 발작이 시작되었다. 이후 타병원에서 간질 진단받고 항경련제 치료 중 난치성 간질로서 수술적 치료위해 본원에 내원하였다. 발작 중 증상에서 전조는 없었고 무의지적인 주시, 얼굴 찌푸리기(grimacing), 오른쪽 팔의 자동증, 왼쪽 팔의 근긴장 이상성 자세, 구강하악 자동증, 침뱉기, 신음 소리(vocalization)를 보였다. 발작 시 침뱉기는 비디오-뇌파(두피-접형 전극) 감시 장치에서 열성 반구 측두엽의 theta파와 같은 서파가 관찰되면서 발작 시작 후 5초 이내의 초기에 보였다. 뇌자기공명영상에서는 우측 측두엽의 해마 경화가 보였고 뇌 양전자방출단층촬영에서는 양쪽 측두엽에서 대사 감소 소견이었으나 오른쪽이 더 심한 소견을 보였으며 발작 중 뇌 단일광자방출단층촬영은 우측 측두엽의 관류증가를 보였다(Fig. 1). 비디오-뇌파(두피-접형 전극) 감시장치에서 발작간 간질파가 우측 측두엽에서 역시 100% 관찰되었고 발작 중 간질파도 우측 측두엽에서 시작되었다. Wada 검사에서는 언어 우성 반구가 좌측 반구였고 기억 능력에서 왼쪽 주사시 10점 중 2점, 오른쪽 주사시 10점 중 0점으로 나타났고, 우측 측두엽 절제술을 시행받았으며 병리 소견상 해마 경화가 나왔다. 수술 후 입원중에 복합 부분 발작이 한 번 있었고 퇴원 후 2년간 외래 추적 관찰 중에는 항경련제 복용하면서 발작은 없었다.

고 찰

열성 반구 측두엽의 간질 발작을 의미하는 증후들에는

Fig. 1. Ictal SPECT of patient 3 showing hyperperfusion on the medial and lateral aspects of the right temporal lobe with involvement of the insular cortex (white arrow).

발작중 구토증(ictal emesis),[1-3] 발작중 기침(ictal coughing), 발작 중 두려움(ictal fearing),[4] 발작 중 말하기(ictal speech),[5] 반응보존성이 있는 자동증(automatisms with preserved responsiveness)[6] 등이 이미 알려진 바 있다. 측두엽 간질 환자에서 발작 중 침뱉기도 열성 측두엽 간질을 가리키는 측위화 소견으로 알려져 있는데,[1][2] 그 빈도에 대한 보고는 Voss 등[7]의 연구에 따르면 560명의 측두엽 절제술을 받은 환자들 중에서 오른손잡이면서 언어 중추가 좌 대뇌 반구인 5명의 환자가 열성 반구의 측두엽에서 간질파가 시작될 때 발작 중 침뱉기를 보였다. 이들의 병리 소견들은 해마 경화 2예, 해면상 혈관종 1예, 희돌기교종(oligodendroglioma) 1예, 이상배엽 신경상피종양(dysembryoplastic neuroepithelial tumor) 1예이었다.

Ozkara 등[8]은 언어 우성 반구가 우측 반구이면서 좌측 측두엽 간질 환자에서 발작 중 침뱉기를 보이는 환자를 보고하면서 발작 중 침뱉기가 열성 측두엽 간질을 가리키는 측위화 소견임을 확인하였다. 본 저자들이 보고한 증례 2에서도 좌측 측두엽 간질을 가지고 있었으나 언어 우성 반구는 우측 반구이었다. 그러나 최근 Pilippe 등[9]은 언어 우성 반구가 좌측 반구이고 두개강내 뇌파 검사에서 간질파가 반대편 대뇌 반구로 확산 없이 좌측 측두엽에서 도의 피질(insular cortex) 영역까지 확산될 때 발작중 침뱉기가 발현되는 예외적인 한 예를 보고하였다. 발작중 침뱉기가 일반적으로 열성 측두엽 간질을 가리키는 측위화 증후인 이유는 위장관계 운동의 조절에 대한 대뇌의 기능성 비대칭에 의해 설명될 수 있다.[7] 또한 피질 자극 연구를 통하여 내장의(visceral) 감각 피질로 알려진 도의 피질이 위장관계 운동을 담당하는 피질로 제시된다.[10] 따라서 발작 중 침뱉기를 일으키는 기전은 아직까지 정확히 알려져 있지는 않으나 측두엽 절제술을 시행받은 환자들에서 침뱉기 증상이 지속되는 경우[7][9]가 있었기 때문에 내측 측두엽 부위가 발작 중 침뱉기와 직접적으로 연관된 해부학적 구조물로 간주되기는 어렵고, 발작 중 침뱉기는 도의 피질을 포함하는 외측 상측두 피질 부위로 발작파의 확산의 결과로 일어나는 것으로 생각된다. 본 저자들이 보고한 3명의 환자에서도 발작 중 침뱉기를 보일 때 시행된 단일광자방출단층촬영에서 도의 피질을 포함한 측두엽의 내측과 외측의 과관류를 보여 주었다. Voss 등[7]은 그들의 증례를 모두가 발작 중 침뱉기가 미각적 환각(gustatory hallucination)의 전조증상 없이 발현되어 미각 전조증상의 반응결과라기 보다는 단독적인 운동성 자동증(motor automatism)으로 생각하였고 Pilippe 등[9]은 그들이 보고한 1명의 환자에서 발작 중 침뱉기가 발작파의 대뇌 외측구 판개(opercular cortex) 및 도의 피질 영역까지 확산될 때 나타나는 불쾌한 미각의 반응결과로 나타나는 경우도 보여주었다. 본 저자들의 2번째 증례에서도 비슷한 경우로 발작중 침뱉기가 미각적 환각에 기인한 다유연의 영향으로도 나타날 수 있음을 보여주었다.

발작 중 침뱉기가 일어날 때 구토증이 전혀 동반되지 않는 경우를[1][2][7] 고려해 보면 발작 중 침뱉기와 구토증이 공통적으로 열성 반구 측두엽의 측위화 소견이지만 침뱉기와 관련된열성 반구내의 측두엽과 도의 피질을 포함하는 네트워크가 다를 것으로 생각된다. 발작 중 침뱉기을 일으키는 정확한 기전을 위해서는 세밀한 방법을 통한 더 많은 연구가 필요할 것으로 생각된다.

REFERENCES

1. Hecker A, Andermann F, Rodin EA. Spitting automatism in temporal lobe seizures with a brief review of etiological and phylogenetic aspects of spitting. *Epilepsia* 1972;13:767-72.
2. Fakhoury T, Abou-Khalil B, Peguero E. Differentiating clinical features of right and left temporal lobe seizures. *Epilepsia* 1994;35:1038-44.
3. Jacome DE, FitzGerald R. Ictus emeticus. *Neurology* 1982;32:209-12.
4. Hermann BP, Wyler AR, Blumer D, Richey ET. Ictal fear: lateralizing significance and implications for understanding the neurobiology of pathological fear states. *Neuropsychiatry Neuropsychol Behav Neurol* 1992;5:205-10.
5. Felix R, Hans L. Presurgical evaluation of epilepsy. *Brain* 2001;124:1683-700.
6. Ebner A, Dinner DS, Noachtar S, Luders H. Automatisms with preserved responsiveness: a lateralizing sign in psychomotor seizures. *Neurology* 1995;45:61-4.
7. Voss NF, Davies KG, Boop FA, Montouris GD, Hermann BP. Spitting automatism in complex partial seizures: A nondominant temporal localizing sign? *Epilepsia* 1999;40:114-6.
8. Ozkara C, Hanoglu L, Eskazan E, Kulaksizogvlu IB, Ozyurt E. Ictal spitting during a left temporal lobe-originated complex partial seizure. a case report. *Epileptic Disorders* 2000;2:169-71.
9. Philippe K, Lorella Minotti. Spitting automatism. *Epileptic Disorders* 2000;2:231-2.
10. Penfield W, Faulk ME. The insula: further observations on its function. *Brain* 1955;78:445-70.