

복합부위통증증후군 환자에서의 전기경련요법

고려대학교 의과대학 정신과학교실,¹ 고려대학교 안산병원 마취통증의학과²

이종하¹ · 고영훈¹ · 양종윤² · 김용구¹ · 한창수¹ · 윤현철¹

Electroconvulsive Therapy for CRPS

Jong-Ha Lee, MD,¹ Young-Hoon Ko, MD,¹ Jong-Yeun Yang, MD,²
Yong-Ku Kim, MD,¹ Changsoo Han, MD,¹ Hyun-Chul Youn, MD¹

¹Department of Psychiatry, Ansan Hospital, Korea University College of Medicine, Ansan, Korea

²Department of Anesthesiology and Pain Medicine, Korea University Ansan Hospital, Ansan, Korea

Complex regional pain syndrome (CRPS) is a disease that causes chronic spontaneous pain and hyperesthesia of one or more parts of legs and arms, which is accompanied with problems of the automatic nervous system or the motor nervous system. However, up to date, it is unclear what causes the syndrome and how to diagnose and treat it. Although several treatments including medication and sympathetic nerve block are performed against CRPS, the therapeutic effect of the treatments is limited. The electroconvulsive therapy (ECT), of which the mechanism is not clarified, is a treatment used for treatment-resistant depression. ECT is also reported to be effective against pain. Therefore, we performed the ECT for a 24-year-old female patient who has been diagnosed as CRPS. Her pain had not been much improved by medications and interventional procedures. At admission to a psychiatric ward for ECT, she complained of over 8 points of pain on visual analogue scale and the constrained movement around the painful part. Eight ECTs-three times a week-were performed for three weeks in hospital and then the ECT once a week was performed after her leaving the hospital. During the ECTs, pain had been reduced and the range of movement in the constrained parts had increased. Further systematic research is needed to confirm the effect of electroconvulsive therapy against CRPS.

Key Words Complex regional pain syndrome · Electroconvulsive therapy · Neuropathic pain.

Received: April 4, 2011 / Revised: April 20, 2011 / Accepted: May 16, 2011

Address for correspondence: Young-Hoon Ko, MD

Department of Psychiatry, Ansan Hospital, Korea University College of Medicine, 516 Gojan 1-dong, Danwon-gu, Ansan 425-707, Korea

Tel: 82+31-412-5981, Fax: 82+31-412-5144, E-mail: koyh@korea.ac.kr, korean@chol.com

서론

복합부위 통증증후군(complex regional pain syndrome, 이하 CRPS)은 한 부위 혹은 두 부위 이상의 사지에 만성적인 자발통, 감각과민을 유발하는 질환으로 자율신경계 및 운동신경계의 기능 이상을 동반한다.¹ 그러나 최근까지도 질환의 원인이나 진단, 치료에 대해서는 논란이 많다. 1994년 국제통증학회(International Association for the Study of Pain, 이하 IASP)에서 처음 진단 기준을 마련하였으며, 2004년에는 임상 진단기준과 연구 진단기준을 개정하였다(Table 1).¹⁾ 미국에서만 최소 연간 5만 명 이상의 CRPS 환자가 발생한다는 보

고 있으며, 전체 인구 10만 명당 26.2명이 CRPS로 진단을 받는다고 추정하고 있다.²⁾ 남성보다는 여성에서 3~4배 정도 호발하고 전 연령에서 나타날 수 있으나 대부분은 중년 이후에 발생하므로, 61~70세의 여성에서 흔하다.³⁾ 일반적으로 골절로 인하여 CRPS가 발생하는 빈도가 가장 높으며 타박상, 수술 후에도 발생하고, 원인을 찾지 못하는 경우도 있다. 현재 CRPS에 대하여 약물 치료, 신경차단술, 척추자극술 등을 시행하고 있으나⁴⁾ 환자의 상태에 따라 제한적인 결과를 보이고 있다. 전기경련요법(electroconvulsive therapy, 이하 ECT)은 정신분열병 및 치료 저항성 우울증의 치료에 이용되는 방법으로 정확한 기전은 밝혀져 있지 않으나 통증 및 CRPS에

Table 1. International Association for the Study of Pain diagnostic criteria for complex regional pain syndrom

Clinical diagnostic criteria for CRPS	
1.	Continuing pain, which is disproportionate to any inciting event
2.	Must report at least one symptom in three of the four following categories <ul style="list-style-type: none"> A. Sensory : reports of the hyperesthesia and/or allodynia B. Vasomotor : reports of temperature asymmetry and/or skin color changes and/or skin color asymmetry C. Sudomotor/Edema : reports of edema and/or sweating changes and/or sweating asymmetry D. Motor/Trophic : reports of decreased range of motion and/or motor dysfunction (weakness, tremor, dystonia) and/or trophic changes (hair, nail, skin)
3.	Must display at least one sign* at time of evaluation in two or more of the following categories <ul style="list-style-type: none"> A. Sensory : evidence of hyperalgesia (to pinprick) and/or allodynia (to light touch and/or deep somatic pressure and/or joint movement) B. Vasomotor : evidence of temperature asymmetry (> 1℃) and/or skin color changes and/or asymmetry C. Sudomotor/Edema: evidence of edema and/or sweating changes and/or sweating asymmetry D. Motor/Trophic : evidence of decreased range of motion and/or motor dysfunction (weakness, tremor, dystonia) and/or trophic changes (hair, nail, skin)
4.	There is no other diagnosis that better explains the signs and symptoms
Research diagnostic criteria for CRPS	
1.	Continuing pain, which is disproportionate to any inciting event
2.	Must report at least one symptom in each of the four following categories <ul style="list-style-type: none"> A. Sensory : reports of the hyperesthesia and/or allodynia B. Vasomotor : reports of temperature asymmetry and/or skin color changes and/or skin color asymmetry C. Sudomotor/Edema : reports of edema and/or sweating changes and/or sweating asymmetry D. Motor/Trophic : reports of decreased range of motion and/or motor dysfunction (weakness, tremor, dystonia) and/or trophic changes (hair, nail, skin)
3.	Must display at least one sign* at time of evaluation in two or more of the following categories <ul style="list-style-type: none"> A. Sensory : Evidence of hyperalgesia (to pinprick) and/or allodynia (to light touch and/or deep somatic pressure and/or joint movement) B. Vasomotor : Evidence of temperature asymmetry and/or skin color changes and/or asymmetry C. Sudomotor/Edema : Evidence of edema and/or sweating changes and/or sweating asymmetry D. Motor/Trophic : Evidence of decreased range of motion and/or motor dysfunction (weakness, tremor, dystonia) and/or trophic changes (hair, nail, skin)
4.	There is no other diagnosis that better explains the signs and symptoms

CRPS : Complex regional pain syndrome

도 효과가 있다고 보고되고 있다.⁵⁾ 그러나 현재까지 우리나라에서는 CRPS를 ECT로 치료한 연구 보고가 없다. 따라서 저자들은 여러 치료에도 불구하고 통증으로 일상 및 사회생활에 상당한 제한을 받던 20대 여성 환자를 ECT로 치료하여 통증의 뚜렷한 호전을 경험하였기에 이를 증례를 통해 보고하고자 한다. 본 증례를 통해 치료에 어려움을 겪는 CRPS 환자들에서 새로운 치료적 대안으로 ECT의 고려를 제안하고자 한다.

증례

환자는 24세 여성으로 2008년 4월 간호조무사로 근무를 하던 중 열리는 문에 왼쪽 어깨를 부딪힌 후 왼쪽 쇄골부위 미세 골절로 처음 치료를 시작하였다. 8자 붕대 고정 후에도 시간이 지날수록 수상 부위의 통증이 악화되었으며 왼쪽 어깨에

서부터 동측 상지 전체로 통증 범위가 증가하였다. 통증은 하루 종일 지속되었으며 기분에 따라 악화화 호전이 반복되었고 심할 경우의 visual analogue scale(VAS), score는 5~6(/10)점 정도였다.

통증이 지속되자 환자는 2008년 5월 6일 고대 안산병원 재활의학과에 내원하였다. 내원 당시 왼쪽 상지 부위로 이질통증(allodynia), 통각과민(hyperalgesia), 부종, 통증 부위의 색 변화를 보였으며, 환부의 피부 온도가 정상 부위에 비해 낮았다. 환자는 CRPS 진단하에 통증 조절을 위해 lidocaine 정맥 주사 치료를 시행받았으며 gabapentin 투약을 시작하였다. 그러나 통증이 조절되지 않아 이틀 후 동병원 통증클리닉에서 20일간 입원 치료를 받았다. 입원시 시행한 골스캔 검사에서 왼쪽 상지 부위의 혈류 감소를 확인하였다. 환자는 입원 기간 동안 카테터를 통한 경추경막외차단술과 흉추교감신경차단술을 받았고 이후 통증과 수상 부위의 색 변화가 감소하

여 퇴원하였다. 그러나 퇴원 후 다시 왼쪽 어깨 부위 및 말단 부위로 통증이 악화되어 응급실에 여러 차례 내원하기도 하였다. 2008년 6월 말부터 환자는 lidocaine 정맥주사 치료를 지속하며 gabapentin을 증량하여 투약하였고 NMDA 차단제인 ketamine 정맥주사 치료를 시작하였다. 또한 통증으로 인한 불안감 및 불면 증상을 조절을 위해서 clonazepam, alprazolam을 투약하였다. 그러나 치료 변경 후에도 통증은 지속되었으며 간헐적으로 심해질 때는 자살사고도 보였다.

환자는 2008년 9월에 수면장애와 사회적 철퇴, 과도한 체중 증가, 자살사고 등의 증상으로 동병원 정신과에 의뢰되었다. 주요 우울장애 진단하에 mirtazapine, lorazepam, escitalopram이 투약되었으며, 통증클리닉에서는 중재적 치료와 함께 morphine, triamcinolone, baclofen을 투약하였다. 2008년 12월 16일 통증클리닉에 재입원하여 한 차례의 경추경막외차단술과 세 차례의 박동성 고주파열 응고술치료(pulsed radiofrequency thermocoagulation)를 받았으나 증상의 뚜렷한 호전은 보이지 않았다. 이후에도 간헐적인 통증의 악화는 계속되었고, 통증이 심할 때는 왼쪽 하지까지 통증이 퍼지는 양상을 보였으며, 통증으로 인하여 정신을 잃고 응급실에 내원하는 일도 있었다. 환자는 통증 치료 시작부터 2년간 통증의 악화로 인하여 총 64회 고대 안산병원 응급실에 내원하였다. 정신과 외래 통원 치료 중 환자는 충동성 조절의 어려움, 자극과민

성, 수면 필요성의 감소, 활동과잉 등의 증상을 보여 2형 양극성 장애로 진단이 변경되었고 quetiapine, lithium, clonazepam, alprazolam, triazolam 등의 정신과 투약을 유지하였다. 환자는 CRPS에 대한 대부분의 치료를 시행하였으나 통증의 악화가 반복되고, 이차적인 우울, 불면, 불안, 부정적 사고 등의 증상이 지속되어 ECT를 통한 통증 조절을 위해 정신과 보호병동에 2010년 10월 입원 후 ECT를 시작하였다.

환자는 입원시 작은 자극이 있거나 가만히 있을 때에도 VAS score 9~10(/10)의 통증을 호소하였으며 해밀턴 우울척도는 18점으로 평가되었다. 환자는 입원 3일째부터 전신마취 하에서 주 3회로 양극성 ECT를 시행받았다. 전신경련을 피하기 위해 propofol과 succinylcholine을 정맥투여 하였고, 공기압지혈대를 이용하여 통증이 없는 오른쪽 팔에서 경련 여부를 판단하도록 하였다. 경련억제를 변경시킬 수 있는 benzodiazepine, 항전간제, 항우울제 등의 약제를 중단하였으며 수면 조절을 위해 매일 오후 9시에 quetiapine 150 mg만 투약하였다. 첫 ECT 후 왼쪽 팔 통증의 VAS score가 9(/10)점에서 6(/10)점으로 감소하였으며 왼쪽 손가락과 왼쪽 손목의 운동 범위가 증가되었다. 입원시에는 왼쪽 팔을 전혀 움직이지 못하였으며 사소한 접촉에도 심한 통증을 호소하였지만, 2회의 ECT를 시행 받은 후 휴지 등의 가벼운 물건을 드는 것을 시도하였으며 이후에는 운동 범위의 증가 및 악력의 강화

Table 2. Change in pain and range of movement during electroconvulsive therapy (ECT)

Date	Visual analogue scale on pain	Number of ECT	Pain and range of movement in the left arm
0	9		Movement restriction (angle < 15-degree)
1	6	#1	
2	7.5		
3	5	#2	Lift light object (below 50 g)-tissue, paper
4	7		
5	5	#3	Increased range of movement : below shoulder height (angle < 90-degree)
6	6		
7	5	#4	Decreased tenderness to touch
8	5		
9	5	#5	Lift a book (about 800 g)
10	7		
11	7		
12	5	#6	Increased range of movement : over shoulder height (angle > 90-degree)
13	5		
14	5	#7	Decreased tenderness tobeat softly
15	5		
16	5	#8	
17	5		
43	7	#9	Pain decreased after ECT
50	5	#10	Pain decreased after ECT

를 보고하였다. 환자는 ECT 3회 시행 후에는 왼쪽 팔을 어깨 높이까지 들어올릴 수 있게 되었고 6회 시행을 받은 후 어깨 이상으로까지 팔을 올리고도 통증이 줄어든 모습을 보였다. 환자는 입원 중 총 8회의 ECT를 시행받았으며 ECT 5회 이후부터는 VAS score가 5(10)점 이하로 유지되었다(Table 2). 치료 경과상 ECT 시술 당일에는 통증의 완화를 보였으나 다음날에는 다시 통증 악화를 반복하였고 이틀간 ECT를 시행 받지 못하는 주말이나 날씨가 흐린 날에는 통증의 악화를 보고하기도 하였지만 치료 동안 전반적으로 VAS score가 감소하였다. 환자는 8회의 치료를 받은 후 왼쪽 팔 부위의 가벼운 자극에는 통증 없이 견딜 수 있었으며 왼쪽 팔을 이용하여 물건을 집거나 책을 펼쳐서 읽는 등 운동 제한에 따른 일상 생활의 제약이 감소하였다. 통증과 동반되는 우울 증상도 호전을 보여 해밀턴우울척도의 점수가 입원 당시 18점에서 퇴원시 8점으로 감소하였다. 그러나 ECT를 반복하면서 턱 부위와 허리 부분으로 근육통을 호소하였고 5회 시행했을 때부터 전반적인 기억력의 감소를 보고하였다. 총 8회의 ECT 후 통증이 완전히 없어지지는 않았지만 대부분의 진통제를 중단할 수 있었으며 왼쪽 팔의 상하, 좌우 운동 범위가 상당히 증가하여 퇴원하였다. 퇴원 후 입원시의 상태가 유지되었으나 환부를 모기에 물리면서 과도한 염증 반응과 함께 통증이 악화되었다. 이에 ECT의 효과를 확인한 저자들은 1주마다 ECT 유지하기로 하였으며 통증에 따라 치료 빈도를 조절하기로 하였다. 일일 수술 센터에서 ECT를 시행하였으며, 첫 치료 후 환자는 VAS score가 9(10)점에서 6(10)점, 두번째 치료에서 10(10)점에서 7(10)점으로 감소하였음을 보고하였다(Table 2).

고 찰

CRPS는 통증 부위의 색, 온도 변화와 같은 객관적인 지표도 있지만 주로 주관적인 지표인 통증이 진단에 크게 관여한다. 통증은 주관적인 측면이 강하여 이를 객관화하기 어려우며 이차적 이득을 목적으로 하는 피병⁶⁾이나 전환장애, 신체화 장애, 척추 신경이나 다른 신경 부위의 기질적인 질환, 염증으로 인한 통증, 섬유근육통 등과 감별을 하는 것 또한 쉽지 않다. 따라서 기질적인 원인을 확인하기 위해 통증 유발 가능성을 가진 부위에 대한 자기공명영상, 골스캔검사, 단순 방사선 검사 등이 진단에 앞서 반드시 필요하다.⁷⁾ CRPS 환자들은 통증으로 인해 직업적, 사회적 능력이 저하되고 이로 인해 우울, 불면, 불안 등을 호소한다. 본 증례의 환자처럼 CRPS 환자는 통증으로 치료를 시작하지만 반복된 치료에도 통증의 악화가 반복되고 일부에서는 전혀 증상이 호전되지 않아 정신과적 증상이 발생하거나 악화되기도 한다. 이러한 정신과적 증

상에 대해서는 benzodiazepine, TCA나 SNRI 등의 항우울제를 사용하기도 하지만 통증이 지속되거나 악화되는 경우 정신과적 약물치료는 임상적으로 큰 효과를 나타내기 어렵다.⁸⁾ ECT는 우울증을 가진 환자들, 특히 빠른 증상의 호전이 필요하거나 항우울제의 치료에도 저항을 보이는 우울증의 환자에서 선택할 수 있는 치료 도구이다. 따라서 일반적으로 과량의 약물을 복용하는 CRPS 환자의 우울증에 대한 치료 방법으로 ECT를 시도해 볼 수 있다.

CRPS의 병태생리학적 기전은 아직 완전하게 설명되지 않지만 교감신경계의 이상, 자율신경계 장애, 중추신경계에서의 신경성형적(neuroplastic) 변화, 말단 신경계 염증 등의 가설이 제기되고 있다. 교감신경계의 이상으로 감각신경계의 통증과 직접적, 간접적으로 관련된 신경전달물질 및 수용체의 변형이 일어나며 이로 인해 손상 신경 분포 이외의 부위로 통증의 확산, 이질통, 자극이 제거된 이후로 지속되는 통증, 통각과민, 감각 과민 등이 발생한다. 이러한 증상들과 관련된 요소로는 serotonin, catecholamine, substance P, enkephalins, thyrotropin-releasing hormones 등이 있다.²⁸⁻¹⁰⁾ ECT는 정신과 영역에서 급성 질환이나 난치성 질환의 치료에 사용된다. 전기 자극으로 인한 경련의 횡수가 누적되면서 서서히 신경계 내에 신경화학적 변화가 일어나 증상의 호전을 보이는 것으로 추정하고 있다. 실제 ECT를 시행한 후 β -endorphin의 혈중 농도가 증가하고 serotonergic system이 활성화 된다는 보고도 있다.¹¹⁾ 이들 신경전달물질은 통증과도 관련되어 있어 ECT는 항우울 효과를 나타낼 뿐 아니라 통증의 감소에도 영향을 미칠 것으로 생각된다. 이러한 가정하에 실험적으로 ECT를 시행하여 CRPS 환자의 증상 호전을 보고한 해외의 증례들이 다수 있다. Wolanin 등⁵⁾은 CRPS와 우울증을 동시에 앓고 있는 42세 여자 환자에서 총 12회의 ECT를 통해 증상의 호전을 확인하였다. Bloomstein 등¹⁾은 21명의 환자들을 대상으로 평균 7회의 ECT를 시행하여 19명의 환자에서 증상의 호전을 확인하였는데 일부 환자는 단극성 ECT에서 양극성 ECT로 변경 후 증상이 호전되었다. Schreiber 등은 19명의 우울증 환자를 대상으로 6회 이상 ECT를 시행하였을 때 통증의 역치와 인내력이 호전되었음을 보고하였다.¹²⁾ William 등은 3명의 환자를 대상으로 ECT를 시행하여 각각 8회, 12회, 16회의 치료 후 통증의 완전한 호전을 확인하였다.¹⁰⁾¹³⁾ ECT와 만성 통증에 대한 연구들은 나이, 성별, 우울증과 동반 여부, 통증 기간, 이차적 이득 여부, 인격장애의 동반, 일차적 통증 혹은 이차적 통증 여부 등이 치료 반응과 관련이 있다고 보고하고 있다.¹⁴⁾ 단극성 ECT보다는 양극성 ECT가 치료 효과가 높으며, 최소 6회 이상의 ECT를 시행하였을 때 증상의 호전 여부를 평가할 수 있다. 이차적으로 발생한 통증 증후군의 경우가 원발성으

로 발생한 경우보다 치료적 효과가 크므로, 통증 치료로 ECT를 시행할 때는 통증이 원발성인지 여부에 대한 평가가 반드시 필요하다. 통증으로 인한 이차적 이득이 있거나 인격 장애가 동반된 경우에는 효과가 제한적이다. 본 증례의 환자도 타박상 이후 이차적으로 발생한 CRPS로 다양한 치료적 증재에도 불구하고 치료 반응이 부족하여 10회(입원 중 8회, 퇴원 후 2회)의 양극성 ECT를 시행하였으며, 임상적으로 의미 있는 통증의 감소와 환부의 운동 범위 증가를 보였다.

ECT는 통증이나 치료저항성 우울증에 대한 효과가 보고되고 있지만 치료 후 부작용이나 경제적인 문제로 심리적인 부담을 줄 수 있는 치료이다. ECT는 약물 치료에 비해 고가의 치료 방법이며 외래에서 시행하기 어려운 치료이다. 기억력 장애 등의 부작용을 줄이기 위해 매일 ECT를 시행할 수는 없으며 6회 이상의 치료를 위해서는 최소 2주 이상의 입원을 필요로 한다. ECT 후 발생할 수 있는 가장 큰 부작용은 기억력 장애이다.¹⁵⁾ 일반적으로 기억력 장애는 대부분 가역적인 것이라고 알려져 있다. 그러나 ECT를 시행하기 전후로 환자가 기억력 장애에 대해 받아들이는 두려움은 ECT 치료의 순응도의 저하에 상당한 영향을 미친다. 또한 ECT 후 나타나는 근육통 등의 부작용과 마취와 관련된 사고의 위험성, ECT 시행 전 일부 약물의 중단 등도 치료 시행에 있어 걸림돌이 될 수 있다. 따라서 CRPS 환자에서 통증 치료의 도구로 이용되기 위해서는 보다 체계적인 임상 연구들이 뒷받침 되어야 할 것이다.

중심 단어: 복합부위통증증후군 · 전기경련요법 · 신경병증성 통증.

Conflicts of interest

The authors have no financial conflicts of interest.

REFERENCES

- 1) Harden RN. Objectification of the diagnostic criteria for CRPS. *Pain Med* 2010;11:1212-1215.
- 2) Bruhl S. An update on the pathophysiology of complex regional pain syndrome. *Anesthesiology* 2010;113:713-725.
- 3) de Mos M, de Bruijn AG, Huygen FJ, Dieleman JP, Stricker BH, Sturkenboom MC. The incidence of complex regional pain syndrome: a population-based study. *Pain* 2007;129:12-20.
- 4) van Eijs F, Stanton-Hicks M, Van Zundert J, Faber CG, Lubenow TR, Mekhail N, et al. Evidence-based interventional pain medicine according to clinical diagnoses. 16. Complex regional pain syndrome. *Pain Pract* 2011;11:70-87.
- 5) Wolanin MW, Gulevski V, Schwartzman RJ. Treatment of CRPS with ECT. *Pain Physician* 2007;10:573-578.
- 6) Kim C. Complex regional pain syndrome: mechanism, diagnosis and treatment. *J Korean Med Assoc* 2008;51:553-568.
- 7) Ochoa JL, Verdugo RJ. Neuropathic pain syndrome displayed by malingers. *J Neuropsychiatry Clin Neurosci* 2010;22:278-286.
- 8) Wasner G, Schattschneider J, Binder A, Baron R. Complex regional pain syndrome--diagnostic, mechanisms, CNS involvement and therapy. *Spinal Cord* 2003;41:61-75.
- 9) Abdi S, Haruo A, Bloomstone J. Electroconvulsive therapy for neuropathic pain: a case report and literature review. *Pain Physician* 2004;7:261-263.
- 10) McDaniel WW. Electroconvulsive therapy in complex regional pain syndromes. *J ECT* 2003;19:226-229.
- 11) Bloomstein JR, Rummans TA, Maruta T, Lin SC, Pileggi TS. The use of electroconvulsive therapy in pain patients. *Psychosomatics* 1996;37:374-379.
- 12) Schreiber S, Shmueli D, Grunhaus L, Dolberg OT, Feldinger E, Magora F, et al. The influence of electroconvulsive therapy on pain threshold and pain tolerance in major depression patients before, during and after treatment. *Eur J Pain* 2003;7:419-424.
- 13) McCance S, Hawton K, Brighthouse D, Glynn C. Does electroconvulsive therapy (ECT) have any role in the management of intractable thalamic pain? *Pain* 1996;68:129-131.
- 14) Rasmussen KG, Rummans TA. Electroconvulsive therapy in the management of chronic pain. *Curr Pain Headache Rep* 2002;6:17-22.
- 15) MacPherson RD, Loo CK. Cognitive impairment following electroconvulsive therapy--does the choice of anesthetic agent make a difference? *J ECT* 2008;24:52-56.