

중뇌 경색 이후 발생한 병적 웃음과 울음 환자: 증례 보고 및 문헌 고찰

문소리 · 박서현 · 안선주 · 금동호
동국대학교 분당한방병원 한방재활의학과

Pathological Laughing and Crying following Midbrain Infarction: Case Report and Literature Review

So-Ri Moon, K.M.D., Seo-Hyun Park, K.M.D., Seon-Joo An, K.M.D., Dong-Ho Keum, K.M.D.
Department of Korean Rehabilitation Medicine, Dongguk University Bundang Oriental Hospital

RECEIVED September 15, 2018
ACCEPTED October 1, 2018

CORRESPONDING TO
Dong-Ho Keum, Department of
Korean Rehabilitation Medicine,
Dongguk University Bundang Oriental
Hospital, 268 Buljeong-ro,
Bundang-gu, Seongnam 13601,
Korea
TEL (031) 710-3728
FAX (031) 710-3780
E-mail keumdh660@naver.com

Copyright © 2018 The Society of
Korean Medicine Rehabilitation

Pathological laughing and crying (PLC) is a condition defined by relatively uncontrollable episodes of laughter, crying or both. PLC is an uncommon symptom usually caused by cerebral lesions. Midbrain involvement causing PLC is extremely unusual and the exact mechanism by which this condition develops is poorly understood. We recently experienced a 51-year-old woman who were diagnosed as PLC after midbrain infarction. She was treated by acupuncture, pulsed electromagnetic therapy (PEMT). After 6 weeks treatment, Pathological Laughter and Crying Scale (PLACS), Korean version of the Scale for the Assessment and Rating of Ataxia (K-SARA) are decreased and Korean version of Modified Barthel Index (K-MBI) is increased. Treatment of traditional Korean Medicine could be effective for stroke rehabilitation including post-stroke PLC. And we have considered mechanism of PLC associated with midbrain lesion, dysfunction of cortex-thalamus-hypothalamus-basal ganglia-mesencephalon and faciorespiratory nuclei pathways, cerebro-ponto-cerebellar pathways and damaged serotonergic neurotransmission can cause this based on recent neurobiology of emotion. To define exact mechanism and find effective treatment, further studies are needed. (**J Korean Med Rehabil 2018;28(4):103-112**)

Key words Pathological laughing and crying, Midbrain infarction, Acupuncture, Pulsed electromagnetic therapy

서론»»»»

병적 웃음과 울음(pathological laughing and crying, PLC)은 감정적 자극이 주어지지 않은 상태에서 부적절한 웃음이나 울음이 갑작스럽게 터져 나오는 증상을 말한다¹⁾. PLC는 근위축성 측삭경화증, 다발성 경화증, 알츠하이머 병, 뇌졸중 등 다양한 신경계 질환에서 나타나는데¹⁻⁴⁾, 뇌졸중은 PLC의 원인 중 약 11~34%를 차지하며 뇌졸중 발병 후 첫 1년 내에서 발생 빈도가 가장 높다^{1,4)}.

PLC가 발생하면 일차적으로 약물치료를 적용한다¹⁾. 선택적 세로토닌 재흡수 억제제, 삼환계 항우울제, 그 외 다른 계열의 약물을 사용하며, 약물의 반응은 빠르게 나타날 경우 복용 첫 주 안에 완전히 치료되기도 하며 길게는 4~5주에 치료반응이 나타나기도 한다¹⁾.

PLC의 발생기전에 대해서는 아직 정확히 알려져 있지 않지만, 이러한 행동적 및 기질적 정신적 변화는 이마엽(frontal lobe) 앞 병변과 관련하여 주로 발생하며⁵⁻⁸⁾, 이외 관련 있는 뇌 구조물로 앞쪽 띠이랑(anterior cingulate

gyrus), 속섬유막(internal capsule), 시상(thalamus), 시상하부(hypothalamus), 다리뇌 바닥부분(basilar part of pons), 소뇌(cerebellum) 등이 최근 보고되고 있다⁴⁾. 하지만 중뇌 부위 병변으로 발생한 PLC에 대해서는 거의 보고된 바가 없으며 이에 한방학적 치료를 시도한 사례는 더욱 드물다.

본 증례의 환자는 중뇌부위의 경색을 진단받은 자로, 발병 1달 후부터 갑자기 울거나 웃는 등 조절되지 않는 감정표현의 삽화를 보였다. 이에 8주 이상의 약물치료를 받았으나 증상이 개선되지 않아 본원 한방재활의학과에 내원하였고 침 치료와 박동성 전기자장치료로 구성된 한방복합치료를 시행한 후 PLC뿐만 아니라 반신 기능부전, 운동실조, 보행 장애 등의 증상에 호전을 보였기에 본 증례를 PLC 유발 기전에 대한 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

대상 및 방법»»»»

1. 연구 대상

좌측 중뇌부위 경색을 진단받은 후 Lauterbach 등³⁾이 제시한 진단기준을 모두 만족하여 PLC로 분류할 수 있는 (Table I) 감정조절 장애, 우측 반신 기능부전, 운동실조 및 보행 장애를 호소하며 동국대학교 분당한방병원에 내원한 51세 여성을 대상으로 하였다. 본 연구는 동국대학교 분당한방병원 기관생명윤리위원회에서 후향적 의무기록 분석을 통한 증례 보고 연구로 연구 승인을 받았다(DUBOH 2018-0011).

Table I. Proposed Pathological Laughing and Crying Criteria

Proposed PLC criteria
At least 3 of the following are required for "Definite PLC", 2 for "Probable PLC", and 1 for "Possible PLC"
1. Stimuli are often inadequate in intensity or inappropriate in emotional valence to trigger a normal response of laughing or crying.
2. Laughing and/or crying often neither depends on, nor always corresponds to, the patient's mood state immediately before the laughing and/or crying.
3. The laughing and/or crying behavior is stereotyped in that it represents the same response each time regardless of stimulus, AND exhibits AT LEAST ONE of the following stereotyped features: the laughing and/or crying behavior is usually of the same intensity, duration, or frequency each time, regardless of stimulus.

Modified from Lauterbach et al.³⁾

PLC: pathological laughing and crying.

2. 치료 방법

1) 침 치료

침 치료는 1회용 호침(stainless steel 0.20×30 mm, Dong Bang Medical Co., Ltd., Boryeong, Korea)을 사용하였고 유침시간을 20분으로 하여 1주 3회 시술하였다. 혈위는 환측 습곡穴 (LI04), 外關穴 (TE05), 曲池穴 (LI11), 陽陵泉穴 (GB34), 三陰交穴 (SP06), 臨泣穴 (GB41), 환측 두부의 神庭穴 (GV24), 頭維穴 (ST8), 翳風穴 (TE17), 건측 太白穴 (SP03), 太淵穴 (LU09), 少府穴 (HT08), 魚際穴 (LU10) 등을 취혈하였다.

2) 박동성 전기자장 치료(pulsed electromagnetic therapy, PEMT 치료)

침 치료 시행 시 박동성 전기자장 치료기(CR-3000, CR Technology, Seongnam, Korea) (Fig. 1)를 사용하여 박동성 전기자장치료(PEMT 치료)를 시행하였다. 치료 부위는 PEMT 치료기의 전기자장이 나오는 치료면을 환자의 전상장골극을 수직으로 그은 선과 대퇴골 대전자를 수직으로 그은 선이 만나는 점에 접촉시켜 대퇴신경을 자극하도록 조절하고 1초간 30 Hz의 자극과 1초간 50 Hz의 자극이 3초의 휴식기를 두고 번갈아 자극하도록 설정한 뒤 10분간 자극하였다. 이후 쇄골 중앙의 하단에 접촉시켜 상완신경총 및 액와동정맥을 자극하도록 조절하고, 1초간 30 Hz의 자극과 1초간 50 Hz의 자극이 3초의 휴식기를 두고 번갈아 자극하도록 설정한 뒤 10분간 자극하였다. 자극은 모두 육안적인 근육 수축이 일어날 정도의 강도로 시행하였다.



Fig. 1. Appearance of pulsed electromagnetic therapy.

3. 평가 방법

1) Pathological Laughter and Crying Scale (PLACS)⁹⁾

감정조절 장애의 호전에 대한 평가 도구로 PLACS를 사용하였다(Table II). PLACS는 PLC의 평가에 가장 많이 쓰이고 있는 지표로¹⁾, PLC의 유발인자, 빈도, 지속기간, 불수의성 및 그와 관련한 기분들에 대해 평가하는 항목들을 포함하고 있다. 웃음 척도와 울음 척도가 각각 나뉘어 평가되며, 웃음이나 울음이 전혀 또는 거의 없음을 0점, 자주 있음을 3점으로 하여 총 54점 만점에서 증상이 호전될수록 0점에 가까워지는 평가지수이다.

2) Korean version of the Scale for the Assessment and Rating of Ataxia (K-SARA)¹⁰⁾

운동실조 호전에 대한 평가도구로 K-SARA를 사용하였다(Table III). K-SARA는 총 8개의 항목으로 구성되어 있으며, 총 60점 만점이며 모든 항목에서 완전히 독립적으로 시행 가능할 경우 가장 낮은 점수인 0점을 받도록 되어있는 평가지수이다.

Table II. Pathological Laughter and Crying Scale

Question	0	1	2	3
	Rarely or not at all	Occasionally	Quite often	Frequency
1. Have you recently experienced sudden episodes of laughter?	0	1	2	3
2. Have you recently experienced sudden episodes of crying?	0	1	2	3
If you have experienced sudden episodes of laughter, please answer the following (questions 3-10), or If you have experienced sudden episodes of crying, please answer the following (questions 11-18)				
3./11. Have these episodes occurred without any cause in your surroundings?	0	1	2	3
4./12. Have these episodes lasted for long period of time?	0	1	2	3
5./13. Have these episodes been uncontrollable by you?	0	1	2	3
6./14. Have these episodes occurred as a result of feeling of happiness/sadness?	0	1	2	3
7./15. Have these episodes occurred in excess of feelings of happiness/sadness?	0	1	2	3
8./16. Have these episodes of laughter occurred with feelings of sadness/happiness?	0	1	2	3
9./17. Have these episodes occurred with any emotions other than happiness/sadness or sadness/happiness, such as nervousness, anger, fear, etc.?	0	1	2	3
10./18. Have these episode caused you any distress or social embarrasment?	0	1	2	3
Sum	0			54

Modified from Robinson et al.⁹⁾

3) Korean version of Modified Barthel Index (K-MBI, 한글판 수정바델지수)¹¹⁾

환자의 신체적, 정신적 기능부전, 운동실조 및 보행 장애에 따른 삶의 질 개선을 위하여 K-MBI를 활용하여 일상생활 수행능력을 평가하였다(Table IV). K-MBI는 10개 항목으로 이루어져 있으며 모든 항목에서 완전히 독립적으로 시행 가능할 경우 가장 높은 점수인 100점을 받도록 되어있는 평가지수이다.

Table III. Korean Version of the Scale for the Assessment and Rating of Ataxia

Category	Score
1. Gait	0~8
2. Stance	0~6
3. Sitting	0~4
4. Speech disturbance	0~6
5. Finger chase	0~4
6. Nose-finger test	0~4
7. Fast alternating hand movements	0~4
8. Heel-shin slide	0~4
Sum	0~60

Modified from Kim et al.¹⁰⁾

Table IV. Korean Version of Modified Barthel Index

Category	1	2	3	4	5
	Dependent	Major help	Can do about half unaided	Minor help	Independent
1. Grooming	0	1	3	4	5
2. Bathing	0	1	3	4	5
3. Feeding	0	2	5	8	10
4. Toilet	0	2	5	8	10
5. Stairs	0	2	5	8	10
6. Dressing	0	2	5	8	10
7. Bowels	0	2	5	8	10
8. Bladdr	0	2	5	8	10
9. Ambulation	0	3	8	12	15
10. Wheelchair*	0	1	3	4	4
11. Chair/Bed transfer	0	3	8	12	15
Sum	0				100

Modified from Jung et al.¹¹⁾

*If walking is possible, do not apply.

증례»»»»

51세의 여자 환자가 약 3달 전부터 시작된 조절되지 않는 웃음과 울음, 우측 반신기능부전, 운동실조, 보행 장애를 주소로 내원하였다. 환자는 심근경색, 우측 엉덩근 근육 내 혈종 제거술, 건선의 병력 외 다른 질환은 없었으며 2017년 12월 16일 구음장애와 우측 안면부 저림이 처음 발생하여 동국대학교 분당한방병원에서 자기공명영상 검사상 좌측 중뇌 경색을 진단받은 후(Fig. 2) 보존적 치료를 시행하였다. 이후 해당 병원 신경외과에 입원하였고 우측 반신 기능부전, 운동실조, 보행 장애, 구음장애, 안구운동장애 등을 호소하여 적극적인 재활치료를 받고 있던 중, 발병 1달 후부터 갑자기 웃거나 우는 등의 조절되지 않는 감정표현의 삽화를 보였다. 이에 신경정신과와 협진하여 약물치료로 렉사프로정, 알프라정, 로라반정 등을 복용하였으나 8주 이상의 약물치료에도 불구하고 증상이 개선되지 않았으며 이와 동반하여 반신 기능부전, 운동실조 및 보행 장애의 호전을 거의 보이지 않아 환자 및 보호자의 적극적인 한방치료 병행을 위하여 본원 한방 재활의학과에 내원하였다.

2018년 3월 26일부터 2018년 5월 14일까지 총 6주간 침 치료 및 PEMT 치료를 실시하였고, 3주 간격으로 총 3번 PLACS, K-SARA, K-MBI를 평가하였다. 2018년 3월 26

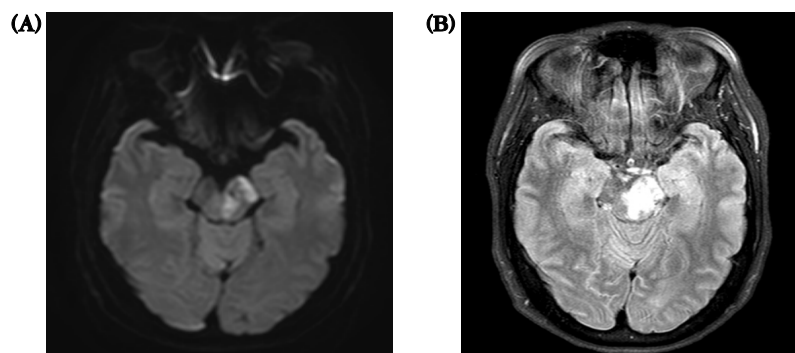


Fig. 2. Brain magnetic resonance imaging (MRI) image. (A) Brain MRI T2-weighted (T2w) image (2017. 12. 18). (B) Brain MRI T2w fluid attenuation inversion recovery image (2017. 12. 18). Acute infarction in the left portion of the midbrain.

일 환자는 식사나 휴식과 같은 일상생활 중, 타인과의 대화 도중 상황에 맞지 않게 갑자기 웃는 등의 증상을 보였다. 증상의 발화 빈도는 하루에 10번 이상이었고 삽화당 30초 이상 지속되었으며 수의적으로 멈출 수 없었다. 웃는 증상이 두드러졌으며 우는 증상은 관찰되지 않았다. 치료 전 평가한 PLACS는 26점이었다. 운동실조 검사 시 K-SARA는 31점이었으며 환자는 자세와 무관하게 흔들리는 느낌으로 주위 물체를 잡아야만 기립이 유지 가능했으며, 보호자 없이 보행 시도가 불가능하였다. K-MBI는 52점이었고 일상생활 시 중등도의 도움이 필요하였다.

3주 후 2018년 4월 18일 환자에게서 과도하게 웃는 증상과 상황에 맞지 않게 우는 증상이 모두 관찰되었다. 하지만 초진 당시와 비교했을 때 웃음 또는 울음의 발화 빈도가 하루 10회 이하로 줄었으며 지속시간 또한 30초 미만으로 줄어드는 양상을 보였다. PLACS는 21점으로 줄어들었다. K-SARA는 31점으로 서기 및 보행 시도 시 쓰러질 듯한 느낌이 거의 호전되어 지지 없이 기립 유지 및 보행이 가능해졌고 K-MBI는 84점으로 일상생활 시 약간의 도움이 필요한 상태였으며 이상 세 가지 평가지표에서 모두 호전을 보였다.

6주 후 2018년 5월 11일 갑자기 웃거나 우는 증상이 거의 소실되었다. 해당 증상은 적절한 강도의 자극이 주어질 때에만 나타났으며 PLACS는 10점으로 꾸준히 감소하였다. K-SARA는 4점, K-MBI는 98점으로 보호자 없이 계단 보행이 가능하였고 대부분의 생활에서 보호자의 도움 없이 독립적인 생활이 가능한 상태로 퇴원하였다(Fig. 3-5).

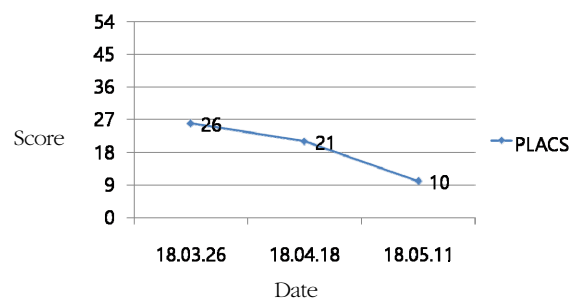


Fig. 3. The change of PLACS score, PLACS: Pathological Laughter and Crying Scale.

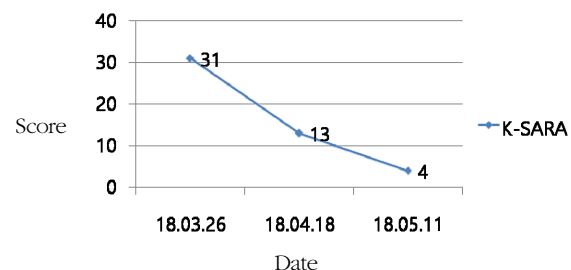


Fig. 4. The change of K-SARA score, K-SARA: Korean version of the Scale for the Assessment and Rating of Ataxia.

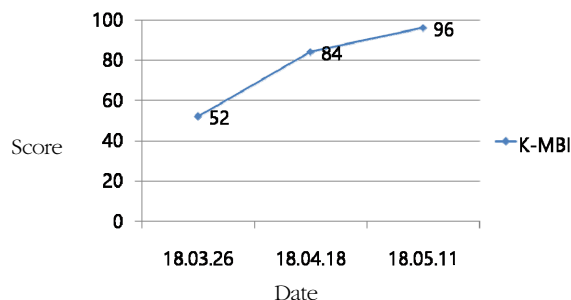


Fig. 5. The change of K-MBI score, K-MBI: Korean version of Modified Barthel Index.

고찰»»»

병적 웃음과 울음(PLC)은 감정과 관계없이 갑작스럽게 표출되는 불수의적 웃음과 울음의 증상을 말한다¹⁾. 예전에는 이를 ‘불수의적 감정표현장애(involuntary emotional expression disorder)’, ‘감정동요(emotional lability)’, ‘감정 실금(emotional incontinence)’, ‘거짓숨뇌감정(pseudobulbar affect)’ 등으로 불렀지만 최근에는 병적 웃음과 울음(PLC)이라 부른다^{1,4)}. Lauterbach 등³⁾이 제시한 기준에 따르면, 감정발화가 비특이적 자극에 의해 유발되거나 감정 반응의 강도가 자극 강도의 범위 이상인 경우, 웃음과 울음이 원래 보이고 있던 기분 상태와 분명히 연관이 없는 경우, 자극에 관계없이 강도, 지속시간 또는 빈도 중 적어도 하나 이상에서 동일한 형태를 보이는 경우 PLC를 의심할 수 있으며, 세 가지 모두를 만족할 경우 ‘진성 PLC (Definite PLC)’로, 두 가지를 만족할 경우 ‘추정 PLC (Probable PLC)’로, 한 가지만 만족할 경우 ‘의심 PLC (Possible PLC)’로 분류한다.

본 증례의 환자는 뇌졸중 발병 1달 후부터, 자극이 주어지지 않은 비특이적 자극 상태에서 갑자기 웃거나 우는 등의 감정 반응이 유발된다는 점, 이전의 기분상태에 관련 없는 감정이 발화된다는 점, 삽화당 지속시간이 30초 이상인 점을 고려할 때 Lauterbach 등³⁾이 제시한 항목 중 세 가지를 모두 만족하여 ‘진성 PLC’의 진단적 범주로 분류할 수 있었다.

PLC와 같은 이러한 기질적 정신 변화는 주로 이마엽 앞 병변으로 발생하는데^{5,8)}, 최근 앞쪽 띠이랑, 속섬유막, 시상, 시상하부, 다리뇌 바닥부분, 소뇌 등의 병변이 추가적으로 보고되고 있다⁴⁾. 하지만 본 증례의 환자는 중뇌부위의 경색 후에 PLC가 유발된 경우로, 이는 중뇌 경색 시에 일반적으로 나타나는 안구운동장애, 소뇌성 운동실조, 구음장애⁵⁾ 이외의 증상에 해당된다. 현재까지 중뇌부위 병변으로 발생한 감정조절장애에 관한 연구는 거의 없으며 이에 관한 정확한 기전 역시 알려져 있지 않다. 이에 본 저자는 현 증례를 보고함과 동시에 중뇌와 관련된 PLC 유발 기전에 대해 문헌 고찰을 하고자 한다.

중뇌와 관련된 감정조절 기전을 이해하기 위해 중뇌부위 병변과 동시에 감정 발화 장애를 보고한 임상 문헌들을 검토하였다. PubMed에서 2018년 8월까지 게재된 논문 중 제목과 초록을 대상으로 검색을 진행하였으며 검색어는 “Pathological Laughing and Crying”[TIAB] OR “Pathological

Laughter”[TIAB] OR “Pathological Laughing” OR “Pathological Crying”[TIAB] OR “Emotional Incontinence” [TIAB] OR “Emotional Lability”[TIAB] OR “Involuntary Emotional Expression Disorder”[TIAB] OR “Pseudobulbar Affect”[TIAB] AND “Midbrain”[TIAB]으로 하였다. 1980년부터 2012년도 까지 총 9개의 연구가 검색되었다(Table V)^{7,8,12-18)}.

9개의 연구들은 PLC에 관해 각각 다른 기전들을 제시하고 있었는데, 이를 다시 세 가지로 정리할 수 있었다(Table VI). 첫째는 전통적 견해로서, PLC는 대뇌겉질의 운동영역에서부터 시작하여 뇌줄기에 위치한 얼굴-호흡신경 핵에 이르는 하행성 경로(cortex-thalamus-hypothalamus-basal ganglia-mesencephalon and faciorespiratory nuclei pathways)의 이상 때문에 발생한다고 본 관점이다^{16,18)}. 특히 뇌줄기의 상부는 중뇌의 수도관주위회색질(periaqueductal gray substances)과 뒤판(tegmentum)이 해당하는 부위로 이 부위의 신경섬유들이 정보를 통합하여 뇌줄기 하부에 위치한 얼굴-호흡신경 핵에 투사를 연계한다. 따라서 이 부위에 신경세포소실이 생길 경우 부적절한 웃음과 울음이 유발될 수 있다^{6,16,18)}.

둘째로, 대뇌다리뇌소뇌 경로의 손상(cerebro-ponto-cerebellar pathways)^{7,14)}이 PLC를 유발할 수 있다. 정상적 상태에서 대뇌겉질과 둘레계통(limbic system)은 자극의 맥락(context)을 인지하고 평가하는데, 이 신호는 소뇌로 전달되어 감정 반응의 정도(level)가 결정된다. 소뇌는 이 정보를 다시 이마엽 앞쪽부분, 운동 겉질, 앞쪽 띠이랑, 시상하부, 뇌신경 핵 등의 실행부위(effector sites)로 투사해 감정을 표현한다. PLC는 국소해부학적으로 소뇌 상부에 위치한 영역들로 구성되는 이 경로에 방해받았을 때 발생하는데, 따라서 이러한 네트워크에 영향을 줄 수 있는 여러 병변 모두 PLC를 유발할 수 있으며 이 네트워크 경로에는 중뇌의 적색핵(red nucleus)과 대뇌다리(cerebral peduncle)가 포함된다¹⁹⁾.

셋째로, 앞서 설명된 신경 네트워크들은 여러 신경전달물질과 신경활성 물질들에 의해 조절되고 그중에서도 특히 세로토닌이 중뇌 및 PLC와 관련 있는 것으로 알려져 있다^{1,20)}. 슬기핵(raphe nuclei) 신경원의 대부분은 신경전달물질로 세로토닌(serotonin, 5-hydroxytryptamine)을 함유하고 있는데, 이 구심성 섬유는 주로 중뇌의 등쪽 슬기핵에서 기원한다²¹⁾. 중뇌의 슬기핵은 둘레계통과 밀접한 상호작용을 하며 상행성으로 앞뇌의 세로토닌 활성을 조

Table V. Reported Literatures of Emotional Expression Disorders in Midbrain Lesion

Authors (years)	Type of study	Number of cases	Symptom	Involved location	Proposed mechanism associated with midbrain
Chaudhry et al ⁷⁾ (2013)	Case report	n=1 13-year-old boy with acute disseminated encephalomyelitis	Pathological laughter or crying, paroxysmal kinesigenic dyskinesia	Periaqueductal gray matter, pontine, midbrain tegmentum, bilateral thalami and left lentiform nucleus	Descending limbic diencephalic tract and bulbar effect organs, cerebro-ponto-cerebellar pathways
Dabby et al ⁸⁾ (2004)	Case report	n=3 with midbrain and pontine-midbrain infraction	Pathological laughter	Midbrain and pons	Damaged supranuclear pontobulbar center, damaged serotonergic neurotransmission
Morris et al ¹²⁾ (2009)	Original article	n=9 of 23 paediatric with posterior fossa syndrome	Cerebellar dysfunction, oromotor/oculomotor apraxia, emotional lability, mutism	Midbrain	Limbic forebrain-limbic midbrain system
Finkelstein et al ¹³⁾ (2008)	Original article	n=6 of 11 Sprague-Dawley rats with subchronic exposure to Manganese	Emotional lability, compulsive behavior and visual hallucinations	Hippocampus, dentate gyrus, olfactory bulbs, pituitary gland, optic nerves and chiasma, pons, midbrain tegmentum, habenula, lentiform and caudate nuclei, thalamus, choroid plexus and cerebellar hemispheres	NA
Cao et al ¹⁴⁾ (2008)	Case report	n=1 14-year-old girl with Rathke cleft cysts	Involuntary laughter, ataxia	Midbrain and pons	Corticobulbar descending pathways, cerebro-ponto-cerebellar pathways
Murai et al ¹⁵⁾ (2003)	Original article	n=6 of 15 stroke patients with pathological crying	Pathological crying	Midbrain and pons	Lower serotonin transporter (SERT) binding ratios in midbrain and pons
Tsutsumi et al ¹⁶⁾ (2000)	Case report	n=1 33-year-old male with tentorial meningioma	Pathological laughter	Midbrain and pons	Cortex-thalamus-hypothalamus-basal ganglia-mesencephalon and facio-respiratory nuclei pathways
Keller et al ¹⁷⁾ (1999)	Case report	n=1 38-year-old male with Wilson's disease	Depressive disorder	Basal ganglia, lentiform nucleus, midbrain	NA
Bauer et al ¹⁸⁾ (1980)	Review article	n=8 with locked in syndrome	Mimic pain reactions, pathological crying, and primordial screaming	Midbrain and pons	Associated with brain stem lesions
Present case	Case report	n=1 with left portion of midbrain infraction	Pathological laughing and crying, right hemiparesis, ataxia	Midbrain	

NA: not available.

Table VI. Frequencies of Mechanism Associated with Midbrain Lesion (based on Table V)

Mechanism	Frequency (n)
Cortex-thalamus-hypothalamus-basal ganglia-mesencephalon and faciorespiratory nuclei pathways	5
Cerebro-ponto-cerebellar pathways	2
Limbic forebrain-limbic midbrain system (serotonergic neurotransmission)	3
NA	2

NA: not available.

절한다(limbic forebrain-limbic midbrain system)²⁰⁾. Murai 등¹⁵⁾의 연구에서 중뇌와 다리뇌의 세로토닌 운반체의 밀도가 병적 울음 환자들에서 유의하게 낮았고 세로토닌성 신경전달의 손상으로 병적 웃음이 유발되며, 치료 약물로 선택적 세로토닌 재흡수 억제제를 우선적으로 적용한다고 하였다⁸⁾.

앞서 언급된 세 가지 기전들(Table VI)에 따라 중뇌부위가 감정조절에 중요한 역할을 한다는 점을 확인할 수 있었다. 따라서 중뇌부위에 병변이 생기면 대뇌겉질에서 뇌줄기 하부의 얼굴-호흡신경 핵까지 이르는 하행성 경로의 문제, 대뇌-다리뇌-소뇌 경로의 손상 및 세로토닌성 신경전달 네트워크의 변화를 초래하여 PLC를 유발할 수 있다고 사료된다.

PLC가 발생했을 때 9개의 검색된 문헌들에서는 자연관해, 약물치료, 병변압박 신생물의 외과적 제거 등의 치료 방법을 사용하였다. Kim 등¹⁾에 따르면 PLC의 치료는 일차적으로 약물치료가 원칙이다. 선택적 세로토닌 재흡수 억제제, 삼환계 항우울제, 그 외 다른 계열의 약물을 적용하며 약물의 반응은 빠르게 나타날 경우 치료 시작 첫 주 안에 완전히 치료되기도 하고 천천히, 길게는 4~5주에 치료반응이 나타나기도 한다. 본 증례의 환자는 선택적 세로토닌 재흡수 억제제를 포함한 항우울제제를 처방받았으며 8주간 지속적으로 복용하였음에도 증상의 호전을 보이지 않았고 추가적으로 경색에 의한 반신기능부전, 운동실조, 보행 장애 등을 보였다.

환자가 호소한 상기 증상들은 한의학적으로 中風 이후 神志不清, 躁擾不安, 煩燥, 癲狂, 半身不遂, 遍身麻木 등으로 표현되며²²⁾, 이에 祛風通絡, 滋養肝腎, 清肝熄風, 化痰熄風의 治法을 사용한다. 본 증례는 환자의 증상 및 中風 치법에 준하여 침 치료 및 PEMT 치료 두 가지로 구성된 한방복합치료를 시행하였다. 6주간의 한방복합치료 이후 환자의 PLACS, K-SARA, K-MBI 등의 평가척도는 모두 호

전을 보였으며 갑자기 웃거나 웃는 등의 증상은 거의 소실되었고, 특히 감정발화의 빈도와 지속시간의 항목에서 큰 호전을 보였다. 또한 물체를 잡아야만 기립유지가 가능한 상태에서 보호자의 지지 없이 계단보행이 가능한 정도로 운동능력 및 일상생활 수행능력의 큰 향상을 보였다.

본 증례의 침 치료에 사용된 혈자리는 허혈성 뇌졸중의 재활단계²³⁾, 뇌졸중 후 우울증²⁴⁾에 관한 연구에서 다용된 陽陵泉穴 (GB34), 足三理穴 (ST36), 懸鍾穴 (GB39), 合谷穴 (LI4), 外關穴 (TE05), 手三理穴 (LI10), 曲池穴 (LI11), 神庭穴 (GV24), 頭維穴 (ST8), 翳風穴 (TE17) 등을 고려하여 선택하였다. 특히 神庭穴 (GV24), 頭維穴 (ST8)은 중풍환자의 頭鍼療法에 다용된 혈자리로서, 頭鍼의 刺戟區 중 精神區, 運動區에 속하여 각각의 상응구에 해당하는 개선 효과가 있으며²²⁾, 曲池 (LI11), 陽陵泉 (GB34)과 外關 (TE5) 등은 뇌와 말초의 운동, 감각 영역의 신호 전달과 연결을 증가시켜 운동 조절 능력 회복에 효과가 있는 것으로 보고된 바 있다²⁵⁾.

또한 침 치료 자체가 재활기의 기능회복에 두 가지 중요한 역할을 하는데²²⁾, 뇌 내 경색부위에 존재하는 구조유지를 위한 최소한의 대사활동을 하고 있는 silent neuron 들을 활성화시켜 중풍의 회복을 촉진시키고, 내재성 대뇌겉질회로에 영향을 주어 그 결과 뇌의 가소성(brain plasticity)을 촉진시킨다. 특히 침은 유해 수용기를 통해 말초의 구심성 자극을 중추신경계로 전달하는 일종의 감각자극이며 이러한 감각자극에 의해 겉질대응영역과 겉질지도가 수정될 수 있다는 여러 연구들이 보고되었다²²⁾.

침 치료 시행 시 함께 사용한 박동성 전기자장 치료 (PEMT)는 비침습적으로 자극을 전달하는 치료법 중 하나로 자기장 파동의 변동 에너지를 통해 신경세포의 탈분극을 유도하고 해마, 겉질, 줄무늬체, 척수 등의 신경원에 폭넓게 분포하는 신경 성장인자를 자극하여 기능적인 회복을 유도하는 데 중요한 역할을 한다²⁶⁾. 본 연구에서는

30 Hz와 50 Hz의 높은 주파수를 사용하였는데, 특히 5 Hz 이상의 높은 주파수는 낮은 것에 비해 대뇌 및 소뇌의 활성도를 높인다고 하였다²⁷⁾.

이를 볼 때 침 치료와 박동성 전기자장 치료는 관련 뇌 구조물의 직·간접적 활성화를 통한 기능개선 및 회로 복구를 유도하는 작용을 하며 신경인성 전달물질만을 조절하는 약물 치료의 한계를 보완할 수 있을 것이라고 사료된다. 이에 요약하면, 본 증례는 대뇌-뇌줄기 하부, 대뇌-다리뇌-소뇌에 이르는 상·하행성경로 및 중뇌 솔기핵의 상행성 세로토닌 기전을 고려할 때 중뇌부위의 경색이 PLC를 유발할 수 있다는 점, 한방치료 이후 관련 평가지표들의 개선을 확인함으로써 PLC의 치료에 대해 약물치료의 한계를 보완하는 다양하고 새로운 방식의 치료적 접근 가능성을 열었다는 점에서 그 의의를 가진다.

그러나 본 보고는 중뇌 경색이 감정 장애를 유발할 수 있고 이에 한방치료가 효과적이라고 확정하기에는 본 증례가 단일 증례라는 점과 치료 시에 약물 상호작용을 고려하지 않았다는 한계를 가진다. 또한 문헌 검색 시 관련 용어의 색인이 제대로 정립되지 않았기 때문에 가장 포괄적인 용어들을 포함하여 검색했음에도 불구하고 관련 기사들이 완전히 포함되지 않았을 가능성이 있다. 따라서 보다 많은 증례 관찰 보고 및 치료 효과를 비교하기 위한 임상대조연구, 체계적인 문헌 고찰 등 PLC에 관한 다양하고 지속적인 연구가 필요할 것으로 사료된다.

References>>>>

1. Kim JH, Nam BW, Choi JY. Pathological laughing and crying: pathophysiology and treatment. *Korean Journal of Psychosomatic Medicine*. 2013;21(2):93-8.
2. Wang GY, Teng F, Chen YH, Liu Y, Li Y, Cai L, Zhang X, Nie Z, Jin L. Clinical features and related factors of poststroke pathological laughing and crying: a case-control study. *Journal of Stroke and Cerebrovascular Disease*. 2016;25(3):556-64.
3. Lauterbach EC, Cummings JL, Kuppuswamy PS. Toward a more precise, clinically-informed pathophysiology of pathological laughing and crying. *Neuroscience and Biobehavioral Reviews*. 2013;37(8):1893-916.
4. Parvizi J, Coburn KL, Shillcutt SD, Coffey CE, Lauterbach EC, Mendez MF. Neuroanatomy of pathological laughing and crying: a report of the American Neuropsychiatric

- Association Committee on research. *J Neuropsychiatry Clin Neurosci*. 2009;21(1):75-87.
5. Norihiro S. *Technique of neurologic examination and process for localization in clinical neurology*. 1st ed. Seoul:Median Books Publication. 2013:204-41.
6. Brandstater ME, Basmajian JV. *Stroke Rehabilitation*. 1st ed. Philadelphia:Williams & Wilkins. 1984:318-29.
7. Chaudhry N, Puri V, Patidar Y, Khwaja GA. Pathological laughter associated with paroxysmal kinesigenic dyskinesia: a rare presentation of acute disseminated encephalomyelitis. *Epilepsy Behav Case Rep*. 2013;1:14-9.
8. Dabby R, Waternberg N, Lampl Y, Eilam A, Rapaport A, Sadeh M. Pathological laughter as a symptom of mid-brain infarction. *Behav Neurol*. 2004;15(3-4):73-6.
9. Robinson RG, Parikh RM, Lipsey JR, Starkstein SE, Price TR. Pathological laughing and crying following stroke: validation of a measurement scale and a double-blind treatment study. *Am J Psychiatry*. 1993;150(2):286-93.
10. Kim BR, Lee JY, Kim MJ, Jung HJ, Lee JM. Korean version of the Scale for the Assessment and Rating of Ataxia in ataxic stroke patients. *Ann Rehabil Med*. 2014;38(6):742-51.
11. Jung HY, Park BK, Shin HS, Kang YK, Pyun SB, Paik NJ, Kim SH, Kim TH, Han TR. Development of the Korean version of Modified Barthel Index (K-MBI): multi-center study for subjects with stroke. *J Korean Acad Rehab Med*. 2007;31(3):283-97.
12. Morris EB, Phillips NS, Laningham FH, Patay Z, Gajjar A, Wallace D, Boop F, Sanford R, Ness KK, Ogg RJ. Proximal dentatothalamic tract involvement in posterior fossa syndrome. *Brain*. 2009;132(11):3087-95.
13. Finkelstein Y, Zhang N, Fitsanakis VA, Avison MJ, Gore JC, Aschner M. Differential deposition of manganese in the rat brain following subchronic exposure to manganese: a T1-weighted magnetic resonance imaging study. *Isr Med Assoc J*. 2008;10(11):793-8.
14. Cao Z, Lv J, Ding Z, Du H. Pathological laughter in a patient with Rathke cleft cyst. *J Clin Neurosci*. 2008;15(11):1279-82.
15. Murai T, Barthel H, Berrouschot J, Sorger D, von Cramon DY, Müller U. Neuroimaging of serotonin transporters in post-stroke pathological crying. *Psychiatry Res*. 2003;123(3):207-11.
16. Tsutsumi S, Hatashita S, Kadota Y, Abe K, Ueno H. Tentorial meningioma associated with pathological laughter-case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 2000;40(5):272-4.
17. Keller R, Torta R, Lagget M, Crasto S, Bergamasco B. Psychiatric symptoms as late onset of Wilson's disease: neuroradiological findings, clinical features and treatment. *Ital J Neurol Sci*. 1999;20(1):49-54.
18. Bauer G, Gerstenbrand F, Hengl W. Involuntary motor

- phenomena in the locked-in syndrome. *J Neurol*. 1980; 223(3):191-8.
19. Parvizi J, Anderson SW, Martin CO, Damasio H, Damasio AR. Pathological laughter and crying: a link to the cerebellum. *Brain*. 2011;124(9):1708-19.
 20. Morgane PJ, Galler JR, Mokler DJ. A review of systems and networks of the limbic forebrain/limbic midbrain. *Progress in Neurobiology*. 2005;75(2):143-60.
 21. Lee WT, Park KA. *Medical Neuroanatomy*. 2nd ed. Seoul:Korea Medical Book Publisher. 2008:375,544.
 22. Kin HS, Moon SG, Park SU, Han CH. *Integrated clinical approach to stroke*. 2nd ed. Seoul:Jeong Dam. 2007:367-409.
 23. Zhu W, Ye Y, Liu Y, Wang XR, Shi GX, Zhang S, Liu CZ. Mechanisms of acupuncture therapy for cerebral ischemia: an evidence-based review of clinical and animal studies on cerebral ischemia. *J Neuroimmune Pharmacol*. 2017;12(4):575-92.
 24. Choi JH, Kim LH, Yun JM, Moon BS. Study of clinical research acupuncture treatment on post-stroke depression. *Korean J Oriental Physiology and Pathology*. 2011;25(6): 1119-28.
 25. Xie Z, Cui F, Zou Y, Bai L. Acupuncture enhances effective connectivity between cerebellum and primary sensorimotor cortex in patients with stable recovery stroke. *Evid Based Complement Alternat Med*. 2014;2014:1-9.
 26. Kim EJ, Sim KC. The neuro-regeneration effect of peripheral nerve stimulation and rTMS in SCI induced rats. *J Korean Health and Fundamental Med Sci*. 2013;6(2):53-9.
 27. Cha HG, Kim MK, Nam HC, Ji SG. Effects of high frequency repetitive magnetic stimulation on function in subacute stroke patients. *Journal of Magnetic*. 2014;19(2): 192-6.