

우반구 뇌 손상 후 나타난 연축성 발성장애 1예

권미선 · 심현섭* · 정선주 · 이재홍

울산대학교 의과대학 서울아산병원 신경과학교실, 이화여자대학교 언어병리학과협동과정*

Address for correspondence

Mi-Seon Kwon, M.S.
Department of Neurology, Asan Medical Center, 388-1 Pungnap-dong, Songpa-gu, Seoul 138-736, Korea
Tel: +82-2-3010-4856
Fax: +82-2-474-4691
E-mail: clerak@yahoo.co.kr

A Case of Spasmodic Dysphonia After a Right Hemispheric Lesion

Mi-Seon Kwon, M.S., Hyun-Sub Sim*, Ph.D., Sun-Ju Chung, M.D., Jae-Hong Lee, M.D.

Department of Neurology, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine; Interdisciplinary Program of Communication Disorders, Ewha Womans University*; Seoul, Korea

Spasmodic dysphonia (SD) is a kind of focal dystonia of larynx and it is classified into three subtypes: adductor type, abductor type, and mixed type. The etiology of SD is not clearly known yet. Cortical dysfunction is regarded as one of the causes of SD based on the clinical data in which patients who showed SD due to the lesion of the central nervous system. The lesions documented so far involve the basal ganglia, supplementary motor area, and thalamus in the dominant hemisphere. We report an unusual case with SD after an ischemic lesion of the precentral gyrus in the right hemisphere, which is rarely mentioned in relation to SD. The characteristics of the symptoms and cortical functions in phonation are discussed.

Key Words : Spasmodic dysphonia, Focal dystonia, Cortical lesion

연축성 발성장애(spasmodic dysphonia: SD)는 1871년 Traube가 “경직형(spastic type)의 심인성 선목소리(psychogenic hoarseness)”로 처음 보고한[1] 이후 이어지는 증례 연구들을 통해, 후두에 국한되어 나타나는 이긴장증의 한 형태로 정의되고 있다. 불수의적인 후두근육의 수축으로 인하여 발성이 규칙적 혹은 불규칙적으로 끊어지거나 다양한 음성의 질적 변화를 가져오게 되며, 주로 발생하는 연령은 40-50대이고 남성보다는 여성에게 보다 빈번하게 나타난다고 한다[2].

SD는 그 장애의 특성에 따라 크게 2가지 유형으로 나누기도 하는데[2, 3] 내전형(adductor type)은 SD 환자 중에서 가장 빈번하게 나타나는 형태로 발성과정에서 불수의적으로 나타나는 성대의 과도한 내전에 의해 목소리가 중간중간 끊어지거나 떨림(tremor)이 동반되어 스타카토식 음질을 보이기도 하고, 쥐어짜는 듯한(strained-strangled) 음성의 질을 특징으로 한다. 반면 외전형(abduction type)은 성대가 불수의적으로 과도하게 외전하여 간헐적으로 기식성(breathy voice)이 나타나거나 목소리가 산출되지 않는 부분이 있기도 하다. 여기에 이 두 가지 특성이 한 환자에게서 함께 나타나는 혼합형(mixed type)을 첨가하여 3가지 유형으로 분류하기도 한다[4].

이 질환의 원인은 아직 뚜렷하게 밝혀지지 않고 있는데, 초기에는 음성에 나타나는 증상 이외에는 다른 기질적인 이상소견을 보이지 않으며 정신적 긴장도가 심해짐에 따라 음성의 변화가

심해지는 것에 주목하여 주로 심리적 원인에 의한 질환(psychogenic disease)으로 보았다. 그러나 최근의 연구들은 SD환자들에게서 신경학적 이상소견[5-7]이 빈번히 관찰되기도 하며, 다른 운동장애 환자들에게서 SD가 동반되어 나타나는 경우도 있고[8] 청신경유발전위검사나 뇌자기공명영상검사 등에서 기질적인 이상소견을 보이기도 하여[9-12] SD는 중추신경계의 이상에 의한 질환으로 생각되고 있다. 특히 대뇌의 기질적인 이상으로 인해 SD를 보인 환자에 대해서는 그 손상영역과 SD의 관계를 추정하기도 하는데 Lee, Lee & Kim[9]은 뇌외상으로 인해 좌측 ventrolateral putaminal lesion을 보인 환자에게서 SD가 나타났다고 보고하였으며, 그 외에도 thalamo-olivary degeneration 환자에게서 SD가 관찰되었다는 보고도 있다[10]. 최근 뇌 영상기술의 발달에 따라 SPECT나 PET를 이용하여 기질적인 이상 외에도 SD와 대뇌의 기능적인 이상의 관련성에 대한 연구도 활발히 이루어지고 있는데 Devous 등은 하나의 국소적인 손상영역보다는 양반구의 다병소적인(multifocal abnormalities) 상태와 관련성이 높다고 보았으며 환자들에게서 공통적으로 나타나는 병소로써 좌측 전두엽을 주목하였다[10]. Hirano 등은 PET를 이용한 정상인과 SD환자의 비교연구에서 supplementary motor area (SMA)가 SD의 원인과 깊은 관련이 있다고 주장하였다[11].

기존의 연구들을 통해 보고된 SD와 관련이 있다고 여겨지는

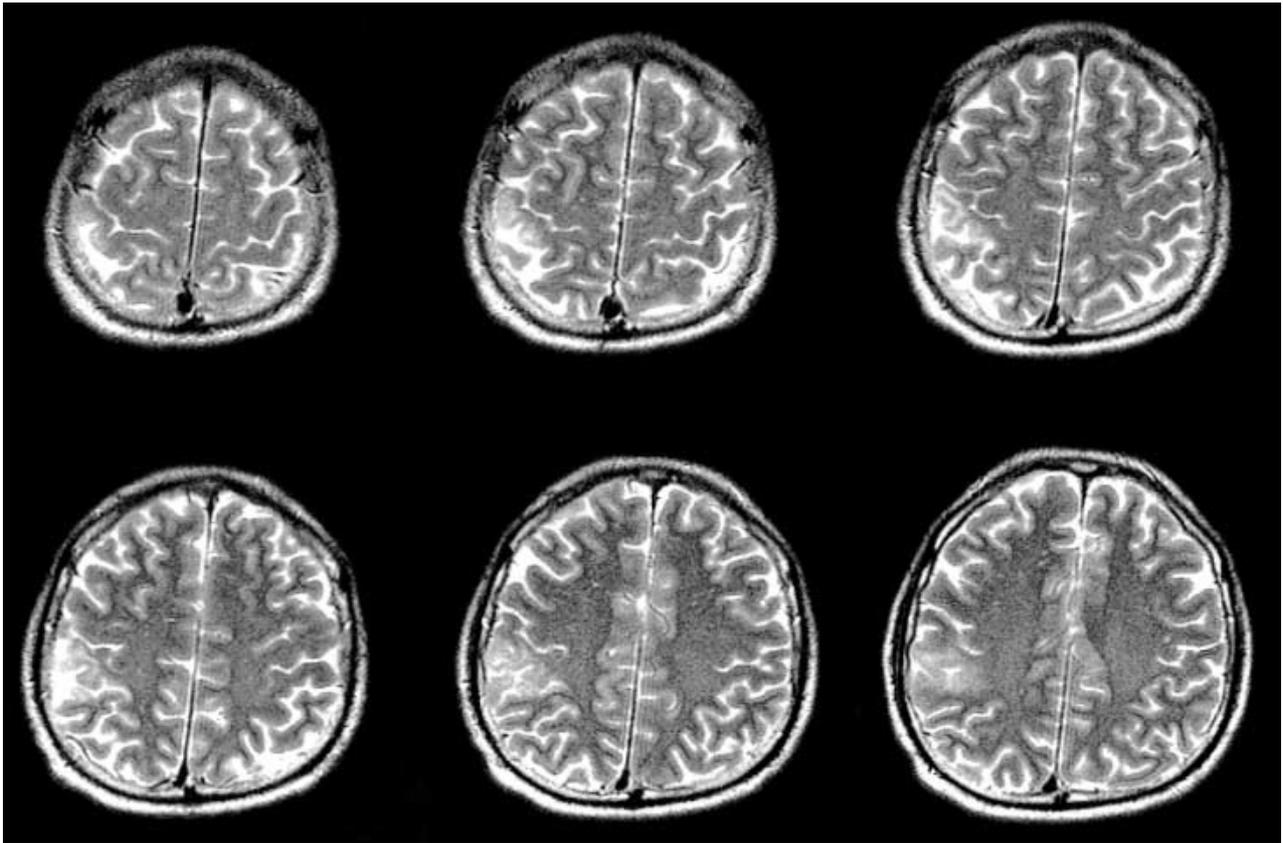


Fig. 1. Axial view of T2-weighted MRI image. High signal intensities are found in the left frontal area, particularly the precentral gyrus.

대뇌의 기질적 혹은 기능적인 영역들 중에서 우반구에 대한 언급은 극히 미미하다. 26명의 SD환자를 대상으로 한 Devous 등의 연구에서도 양반구의 손상이 가장 많았으나 SD환자 중, 우반구 단독 손상을 보인 경우는 한 사례도 없었다고 하였다[11]. 본 연구에서는 이전의 연구들에서 찾아볼 수 없었던 우반구의 전두엽의 국소적인 병변으로 인해 SD가 발생한 환자 사례에 대해 보고하고자 한다.

증 례

환자는 58세 남자로 오른손잡이이며 고졸학력의 회사원이었다. 평소 혈압이나 당뇨, 혹은 심장기능의 이상은 없었다고 하며 담배를 하루 평균 한갑 반 정도 피워왔으나 비교적 건강한 상태를 유지해왔다고 하였다. 2002년 3월경부터 양손과 발 끝에 저린 느낌이 있어 한의원에 치료를 받으러 다녔는데, 2002년 7월 11일 한의원에서 돌아오던 중, 버스를 타려고 할 때 갑자기 왼쪽 팔에 힘이 빠지며 앞으로 넘어져 의식을 잃었고 구급차 안에서 의식을 회복한 일이 있다고 한다. 당시 인근병원으로 옮겨져 검사를 받은 결과 우측 전두엽 부위의 뇌경색으로 진단을 받았고 이에 대한 약을 복용해왔으며 그 이후 별다른 이상은 없었다고

한다.

2002년 9월 3일 갑자기 발음이 어둔해지면서 목소리가 이상해지고 딸꾹질이 계속되는 증상이 발생하였으며 9월 6일 증상이 더욱 심해지자 서울 아산병원 응급실로 내원하였다. 당시 환자는 의식은 명료한 상태였고 사람이나 장소, 시간에 대한 지남력은 모두 정상이었다. 신경학적 검사 상 뇌신경검사에서는 마비말장애와 발성장애를 제외하고는 다른 이상소견은 보이지 않았다. 좌우의 근력은 정상이었으나 오른쪽 손의 dexterity가 약간 떨어져 있었고 객관적인 감각 이상은 없었으나 왼손에 paresthesia를 호소하였다. 심부건반사는 양쪽이 대칭적이었다.

2002년 9월 7일 실시한 뇌 MRI검사결과 T2-강조영상에서 우측 precentral gyrus부위에 고신호병변이 관찰되었다(Fig. 1). MRA 검사에서는 좌측 척추동맥에 약간의 협착을 보였을 뿐 특별한 이상소견은 관찰되지 않았다. 이비인후과 검사에서 성대의 기질적인 이상소견은 보이지 않았으며 환자의 음성평가에서 연속성 발성장애의 내전형(adduction type)으로 진단을 받았다.

환자의 음성은 쥐어짜는 듯한 소리(strained-strangled voice)의 특성을 보였으며 경한 정도의 마비말장애를 보였으나 말명료도(speech intelligibility)에는 큰 영향을 미치지 않았다. 말의 산출에서 전체적인 말속도는 연속성 발성장애로 인하여 다소 저하된 상태였으며 중간에 간헐적으로 잠깐 동안의 부적절한 숨

(pause)과 떨림을 보였다. 모음 연장과제(prolonged vowel)에서 최대발성지속시간(maximum phonation time)은 12-16초로 다소 저하된 상태였고, 중간에 불수의적인 laryngospasm에 의한 리드미컬한 떨림과 간헐적인 목소리의 끊김을 보이기도 하였다. Rapid alternative motion (RAM) 속도는 저하되어 있었고 laryngospasm으로 인한 음성의 변화가 발생하는 부분에서 규칙성이 심하게 붕괴되는 것이 관찰되었다. 이상과 같이 지각적인 음성평가에서도 연속성 발생장애에 부합하는 특성을 보였다.

고찰

SD의 원인에 대한 논의 중 심리적인 요인이 완전히 무시되고 있는 것은 아니다. 또한 전혀 원인을 알 수 없는 경우도 있어서 SD를 그 원인 별로 신경학적인 요인에 의한 것, 심리적인 원인이 뚜렷하며 신경학적인 이상소견은 보이지 않는 경우, 그리고 특발성(idiopathic)으로 나누기도 한다[13]. 본 환자의 경우는 증세가 나타나기 전후로 뚜렷한 사회-심리학적 문제나 변화 등은 없었고, 갑자기 발생한 우반구의 허혈성 병변과 함께 증상이 나타났다는 점에서 신경학적 요인에 의한 연속성 발생장애의 사례로 결론을 내릴 수 있다.

SD와 대뇌피질 혹은 피질하 구조, 기능과의 관련성에 대한 논의는 뇌손상 후 SD를 보였던 몇몇 사례들을 통해서 이루어져 왔는데 이들을 종합해보면 좌대뇌반구의 전두엽과 피질하 구조의 상위운동신경(upper motor neuron)과의 관련성[14], 양반구의 다병소적 손상 중 전두엽의 middle, superior gyri와 cingulate 그리고 측두엽의 inferior, middle gyri[11]와 이에 관련된 피질하 영역과 더불어 우측 측두엽, 두정엽의 후방부와의 높은 관련성[15], 시상[10], 기저핵[13], ventrolateral putamen[9], 그리고 보조운동영역(supplementary motor area)[12, 16]과의 관련성이 제기되어왔다. 그러나 이와 같은 보고의 대부분은 좌반구의 손상에 국한되어 있거나 양반구의 손상에 의한 것이며 우반구 단독적인 손상에 의해서 SD를 보였던 사례는 찾아볼 수 없다[11].

본 사례의 경우 2002년 7월 발생한 뇌경색으로 우대뇌반구의 전두엽에 손상이 있었으나 당시에는 이와 관련된 별다른 증상이 나타나지 않았다. 그러나 2개월 후인 2002년 9월 다시 발생한 우대뇌반구 전두엽의 허혈성 뇌병변과 함께 SD를 보였는데 이때, 성대의 기질적인 문제나 기타 다른 신경학적인 질환은 찾아볼 수 없었으므로 우반구의 precentral gyrus를 중심으로 한 전두엽 손상이 SD를 초래했다고 결론지을 수 있다.

우선 우반구 손상이라는 점에 대하여 고찰해보면, 손잡이 평가에서 환자는 식사나 글씨를 쓰는 일은 물론 기타 도구의 사용이나 공 던지기 등과 같이 힘을 필요로 하는 일 등을 모두 오른손으로 한다고 보고하였다. 그럼에도 불구하고 극히 드문 일기는 하나 우반구가 우성 반구(dominant hemisphere)일 가능성

에 대한 가정이 제기될 수 있다. 오른손잡이임에도 우대뇌반구에 언어산출을 담당하고 있는 사례는 이미 보고되었고 기능적 뇌영상촬영을 통해서도 확인된 바 있다[17]. 따라서 crossed aphasia처럼 우대뇌반구 병변으로 SD가 발생했을 가능성을 배제할 수 없다. 또 다른 가정은 고전적인 말산출에 대한 모델에서 제시한 바와는 달리 말 산출에 있어서 우반구가 보다 적극적으로 관여하고 있을 가능성이다. 우반구가 운율(prosody)의 산출이나 이해에 관여한다는 것은 이미 잘 알려진 사실이며 그 외에도 음성의 실행에 있어서 우반구의 역할이나[18], 좌반구의 손상 이후 말운동 조정기능이 우반구로 이동한 사례[19], 우반구의 말산출에 관한 연구[20]를 통해 좌대뇌반구가 말산출을 전담한다는 입장에 대한 다른 견해들이 나오고 있다.

말의 산출에 관련된 고전적인 개념은 좌측 전두엽과 측두엽에서 말운동프로그램이 된 후, mesial frontal cortex의 cingulate에서 음성의 개시가 일어나도록 하고 premotor, motor cortex에서 운동 프로그래밍을 실행시킬 수 있도록 조정하는 역할을 하며 최종적으로 primary laryngeal motor cortex를 통해 말소리가 산출된다는 것이다[14]. SD가 발생하는 것은 주로 primary laryngeal motor cortex 이전 단계에 손상이 있을 경우인데, 본 사례의 경우는 primary motor cortex의 손상이었다는 점 또한 특이한 경우라고 하겠다. Primary laryngeal motor cortex가 손상된 환자들에게서 SD가 나타나지 않는 이유는 bilateral supranuclear projection으로 인하여 한쪽의 손상만으로는 SD가 나타나는 필요조건은 될지 모르나 충분조건은 되지 못하기 때문이라고 하였으나 그렇다고 전혀 발생할 가능성이 없는 것은 아니다[15].

본 연구에서는 대뇌의 국소적인 손상에 의해서는 드물게 나타나는 연속성 발생장애 사례에 대해 보고하면서 SD와 대뇌손상 영역, 즉 우반구 전두엽 손상과의 관련성에 대한 고찰을 통해 정상적인 발성의 메커니즘에 관련된 대뇌의 기능에 대해 살펴보았다. 한 사례를 토대로 SD의 원인을 규명하는 것은 불가능한 일이나 SD의 신경학적인 원인에 대한 앞으로의 연구에 활력이 되기를 기대한다.

참고문헌

1. Milutinovic Z, Kosanovic R. Contribution to the understanding of the etiology of spastic dysphonia. *Folia Phoniatrica*, 1990; 42: 98-100.
2. Duffy JR. *Motor Speech Disorders: Substrates, Differential Diagnosis, and Management*. St. Louis: Mosby, 1995: 212-6.
3. Aronson AE. *Clinical Voice Disorders: an Interdisciplinary Approach*. New York: Thieme-Stratton Inc. 1985: 219-31.
4. Cammito MP, Johnson JP. Spastic dysphonia: a continuum disorder. *Journal of Communication Disorders* 1981; 14: 215-23.
5. 이상복, 이명식, 최홍식, 김광문. 연속성 발생장애에 환자의 신경학적

- 측면. 대한신경학회지 1996; 14: 940-50.
6. Aronson AE, Brown JR, Litin ME, Pearson JS. *Spastic dysphonia, I: voice neurologic, and psychiatric aspects.* *Journal of Speech and Hearing Disorders* 1968a; 33: 203-18.
 7. Pool KD, Freeman FJ, Finitzo T, Hayashi MM, Chapman SB, Devous MD, et al. *Kondraske, G. V., Mendelsohn, D., Schaefer, S. D. & Watson, B. C. Heterogeneity in spasmodic dysphonia.* *Archives of Neurology* 1991; 48: 305-9.
 8. Aronson AE, Brown JR, Litin ME, Pearson JS. *Spastic dysphonia, II: comparison with essential tremor and other neurologic psychogenic dysphonias.* *Journal of Speech and Hearing Disorders* 1968b; 33: 219-31.
 9. Lee MS, Lee SB, Kim WC. *Spasmodic dysphonia associated with a left ventrolateral putaminal lesion.* *Neurology* 1996; 47: 827-8.
 10. Yamamoto T, Yamashita M. *Talamo-olivary degeneration in a patient with laryngopharyngeal dystonia.* *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry* 1995; 59: 438-41.
 11. Devous MD Sr., Pool KD, Finitzo T, Freeman FJ, Schaefer SD, Watson BC, Kondraske GV, Chapman SB. *Evidence for cortical dysfunction in spasmodic dysphonia: regional cerebral blood flow and quantitative electrophysiology.* *Brain and Language* 1990; 39: 331-44.
 12. Hirono S, Kojima H, Naito Y, Tateya I, Shoki K, Kaneko K, Inoue M, Nishizawa S, Konishi J. *Cortical dysfunction of the supplementary motor area in a spasmodic dysphonia patient.* *American Journal of Otolaryngology* 2001; 22: 219-22.
 13. Ludlow CL, Connor NP. *Dynamic aspects of phonatory control in spasmodic dysphonia.* *Journal of Speech and Hearing Research* 1987; 30: 197-206.
 14. Pinelli P. *Neurophysiology in the science of speech.* *Current Opinion in Neurology and Neurosurgery*, 1992; 5: 744-55.
 15. Finitzo T, Freeman F. *Spasmodic dysphonia, whether and where: results of seven years of research.* *Journal of Speech and Hearing Research* 1989; 32: 541-55.
 16. Verfaellie M, Heilman KM. *Response preparation and response inhibition after lesion of the medial frontal lobe.* *Archives of Neurology* 1987; 44: 1265-71.
 17. Klein D, Milner B, Zatorre RJ, Visca R, Olivier A. *Cerebral organization in a right-handed trilingual patient with right-hemisphere speech: a Positron emission tomography study.* *Neurocase* 2002; 8: 369-75.
 18. Kurowski KM, Blumstein SE, Mathison H. *Consonant and vowel production of right hemisphere patients.* *Brain and language* 1998; 63: 276-300.
 19. Riecker A, Wildgruber D, Grodd W, Ackermann H. *Reorganization of speech production at the motor cortex and cerebellum following capsular infarction: a follow-up functional magnetic resonance imaging study.* *Neurocase* 2002; 8: 417-23.
 20. Code C. *Can the right hemisphere speak?* *Brain and language* 1997; 57: 38-59.