http://dx.doi.org/10.4093/jkd.2014.15.4.244

케톤성 고혈당과 관련된 단무도증으로 처음 진단된 당뇨병 1예

인제대학교 부산백병원 내과
이시형, 이동우, 이영민, 김태균, 권민정, 이순희, 박정현

A Case of Type 2 Diabetes Mellitus Initially Presented as Monochorea Associated with Ketotic Hyperglycemia

Si Hyeong Lee, Dong Woo Lee, Yeong Min Lee, Tae Kyun Kim, Min Jeong Kwon, Soon Hee Lee, Jeong Hyun Park
Department of Internal Medicine, Inje University Pusan Paik Hospital, Pusan, Korea

Abstract

Monoballismus-monochorea is abnormal neurologic sign characterized by continuous, involuntary and irregular movement involving one extremity. Hyperglycemic ballism-chorea is predominantly observed in older type 2 diabetic patients and non-ketotic hyperglycemia, and is associated with contralateral striatal hyperintensities (i.e., putamen and caudate) on both brain CT and MRI. Movement disorders as the initial symptoms of diabetes mellitus are rare, especially in ketotic hyperglycemia. Here, we report one of these rare manifestations of transient monoballismus with during an episode of ketotic hyperglycemia without contralateral striatal abnormal findings on brain MRI in newly diagnosed diabetes mellitus. (J Korean Diabetes 2014;15:244-247)

Keywords: Dyskinesia, Hyperglycemia, Ketosis

서 론

무도증(chorea), 도리깨질증(ballism)은 지속적이고 불수의적이며 불규칙적인 운동을 특징으로 하는 신경학적 이상으로[1], 일측에서 비대칭적으로 발생하는 경우 반쪽무도증(hemichorea), 반쪽도리깨운동증(hemiballism)이라 하며, 사지 중 한 곳에서 발생하는 경우 단무도증(monochorea)이라 한다[2]. 무도증은 기저핵에 영향을 미칠 수 있는 대사성 질환[3-5], 혈관질환, 구조적 이상, 외상, 약물 및 독물, 감염, 염증성 질환 등 다양한 질환들에 의해 발생할 수 있다[3,5-8]. 그 중 당뇨병이 무도증을 유발하는 기전은 아직까지 명확하게 밝혀져 있지 않으나 병변 반대 측의 기저핵과 관련된, 대사변화 또는 염증 반응이 동반된 혈관병증과 같은 선택적 신경 손상 등이 관련 있을 것이라 생각되고 있다[9-12].

당뇨병의 첫 증상으로 운동장애는 드물며[5,6], 비케톤성 고혈당과 동반된 반쪽무도증이 보고된 바는 국내외에 있으나[9,13-16], 케톤성 고혈당과 동반된 운동장애 중 단무도증은 국외에서 1예[17]만 보고되어 있다. 저자들은 당뇨병의 과거력 없이 건강히 지내던 사람이 다른 동반 증상 없이 좌측 상지의 운동 이상으로 다른 병원 진료를 하였으나 증상이 호전되지 않아 응급실 통해 내원한 환자로 케톤성 고혈당과 관련된 단무도증으로 확인되어 혈당 조절로 단무도증이 호전된 증례가 있어 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 박OO, 여자, 60세
주 소: 좌측 상지의 불수의적 운동
현병력: 내원 7일 전부터 좌측 상지의 불수의적 운동

교신저자: 권민정, 부산시 부산진구 복지로 75 인제대학교 부산백병원 내분비내과, E-mail: koma911@naver.com

이 발생하여 병원에 왔다. 내원 4일 전 타 병원 방문하여 뇌 자기공명영상을 촬영하여 이상 소견이 없다는 이야기를 들었으나 이후에도 증상 호전이 없어 본원 응급실로 왔다. 다음, 다뇨, 다갈, 체중 감소 등의 증상은 호소하지 않았다.

과거력: 4년 전 고혈압 진단받은 후 olmesartan, amlodipine, indapamide을 복약하고 있었으나 그 외 진단받은 다른 질병이나 복용한 약제는 없었다.

가족력: 특이 사항 없었음.

신체검사 소견: 키는 160 cm, 체중은 60 kg, 체질량지수는 23.4 kg/m^{2}이었으며, 혈압은 110/60 mm Hg, 맥박은 82회/분, 호흡은 24회/분, 체온은 36.5도였고, 의식은 명료하였다. 급성 병색은 보이지 않았으며, 혀는 건조하였다. 좌측 상지에 불수의적이면서 불규칙적인 율동성 운동이 관찰되었고, 신경학적 검사에서 특이 소견은 없었다.

검사실 소견: 내원 시 시행한 혈액검사에서 혈색소 13.3 g/dL, 백혈구 10,230/mm^3, 혈소판 178,000/mm^{3}이었다. 포도당 816 mg/dL, 혈액요소질소 34 mg/dL, 크레아티닌 1.38 mg/dL이었으며 나트륨 128 mEq/L, 칼륨 5.3 mEq/L, 염소 86 mEq/L, 칼슘 9.2 mEq/L, 인 4.7 mg/dL이었다. 동맥혈가스검사에서 pH 7.38, $PaCO_2$ 39.0 mm Hg, PaO_2 74.0 mm Hg, HCO_3^- 25.3 mmol/L, SpO_2 94.9%였으며 음이온차(anion gap) 16.7 mmol/L이었다. 당화혈색소 12.7%, C-펩티드 1.65 ng/mL, 혈청 케톤은 3.9 mmol/L, 요케톤은 +++ 100 mg/dL이었고, 혈청 삼투압은 325 mOsm/kg이었다.

그 밖에 CRP 0.49 mg/dL, 항GAD항체, 췌도세포자가항체, 인슐린 항체는 모두 음성이었다.

심전도는 정상 동율동이었다.

방사선 검사: 흉부 및 복부 단순촬영에서 이상소견 없었다. 내원 4일 전 타 병원에서 시행한 뇌 전산화단층촬영 및 뇌 자기공명영상(Fig. 1)에서 특이소견 없었다.

치료 및 경과: 상기 검사 결과들을 종합하여 제2형 당뇨병, 급성 신부전, 케톤성 고혈당으로 진단하여, 충분한 수액공급과 인슐린 정맥 투여로 혈당을 조절하였다. 치료 2일 째 혈당은 100~200 mg/dL으로 유지되었으며, 좌측 상지의 국부 무도성 운동은 거의 소실되었다. 이후 인슐린 다회 피하 주사로 변경하여 퇴원하였다. 퇴원 후 조절 양호하여 경구혈당강하제로 변경하였으며, 10개월이 지난 현재 glimepiride 2 mg, metformin 500 mg 복약 중 공복 혈당 120 mg/dL, 식후혈당 199 mg/dL, 당화혈색소는 6.2%으로, 특별한 신경학적 증상 없이 외래에서 추적 관찰 중이다.

고 찰

무도증(chorea), 도리깨질증(ballism)은 불수의적이고 불규칙적인 빠른 율동적 운동을 특징으로 하는 운동장애로 도리깨질증과 무도병은 그 침범된 근육과 장애의 정도에 따라 구분되나[1], 하나의 스펙트럼에 속한다. 무도증은 그 운동 장애의 범위에 따라, 가장 흔히 관찰되는, 일측에서 비대칭적으로 발생하는 반쪽무도증(hemichorea)과 사지 중 한 곳에서 발생하는 경우 단무도증(monochorea)으로 분류될 수 있다[2]. 무도증은 기저핵에 영향을 미칠 수 있는 대사성 질환, 혈관질환, 구조적 이상, 외상, 약물 및 독물, 감염, 염증성 질환 등 다양한 질환들에 의해 발생할 수 있다[3-7].

당뇨병이 무도증을 유발하는 기전은 아직까지 명확하게 밝혀져 있지 않으나 병변 반대 측의 기저핵과 관련된 감마아미노부티르산(gamma aminobutyric acid, GABA)의 결핍이 주된 기전이라는 가설이 있으며[9], 뇌 자기공명영상 소견을 근거로 한 허혈, 석회화, 수초용해, 점상출혈, 선택적 신경손상이 유발한다는 가설, 혹은 부검 소견을 근거로 신경교증, 보상성 성상세포

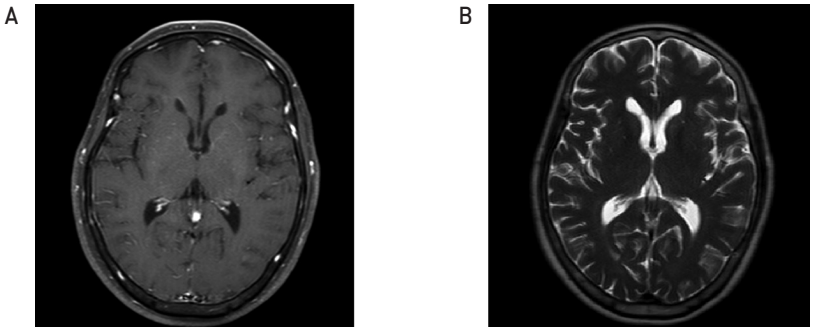

Fig. 1.
There is no abnormal signal change in bilateral striatum on magnetic resonance imaging.

증식증 등이 무도증과 관련 있을 것이라 생각되고 있다[10–12].

케톤성 고혈당의 경우, 케톤체가 에너지원으로써 사용되며, GABA가 케톤체에서 재합성될 수 있으나, 비케톤성 고혈당의 경우 GABA가 결핍되며 이로 인한 GABA성 활동의 감소로 무도증이 발생한다는 가설은 케톤성 고혈당과 관련된 운동 장애가 드문 이유를 뒷받침해주는 근거이다[9]. 실제로 비케톤성 고혈당과 동반된 반쪽무도증이 보고된 바는 국내외에 있으나[9,13–16], 단일 증례로 케톤성 고혈당과 동반된 무도증의 경우 반쪽무도증은 국외에서 2예[18,19], 국내에서 1예만 보고되어 있고[20], 단무도증은 국외에서 1예만 보고되었을 뿐[17], 국내에서는 아직까지 보고된 바가 없다.

본 증례는 당뇨병의 과거력이 없는 환자에서 다음, 다뇨, 체중감소와 같은 특징적인 고혈당 관련 증상에 대한 뚜렷한 인지 없이 무도증으로 제2형 당뇨병이 처음 진단되었으며, 케톤성 고혈당이 있음에도 운동 장애가 발생하였고, 국내 다른 증례와는 달리 단무도증이라는 차이점이 있다. 본 증례에서 혈당의 정도와 급성 신기능 저하가 동반된 것으로 보아 고혈당 증상이 있었을 것으로 예상은 되지만, 노인에서와 같이 침분비 저하로 입 마름 등의 증상이 평소 있던 경우나 예민하지 않은 환자에서는 증상을 인지하지 못할 수도 있다는 점을 간과해서는 안될 것이다.

당뇨병과 동반된 반쪽무도증의 방사선학적 소견은 뇌 자기공명영상에서 기저핵과 선조체에 T1 강조영상에 고신호 강도와 T2 강조영상에서 저신호 강도를 특징으로 하며[9,13–16]. 양전자 단층촬영 및 단일광자 단층촬영이 무도증의 발현에 있어 선조체 대사변화와 관련되어 있다는 보고가 있다. 본 증례의 경우 운동 장애로 타원에서 진료 후 시행한 뇌 자기공명영상에서 이상 소견이 보이지 않았으며, 혈당 조절 및 수액 공급으로 치료 2일 째 증상이 소실되어 양전자 단층촬영 및 단일광자 단층촬영 등의 추가적인 방사선학적 검사를 시행하지 않았다. 이에 단무도증의 경우 반쪽무도증과는 다른 기전으로 발생하는 지에 대해서는 추가적인 연구가 필요할 것으로 생각되며, 양전자 단층촬영 및 단일광자 단층촬영의 순차적 검사가 이에 도움이 될 수 있을 것으로 사료된다.

결론적으로, 운동 장애를 주소로 내원한 환자에서 신경학적 진찰 및 검사뿐 아니라 당뇨병을 비롯한 대사성 질환의 가능성을 고려하여야 하며, 고혈당과 관련된 무도증의 경우 다른 약물치료 보다 충분한 수액공급과 철저한 혈당 조절이 치료에 주요한 방법일 것으로 생각된다.

참고문헌

1. Martin JP. Hemichorea (hemiballismus) without lesions in the corpus Luysii. Brain 1957;80:1-10.
2. Yetimalar Y, Seçkin M, Seçil Y, Başoğlu M. Lamotrigine-induced bilateral ballism. Mov Disord 2007;22:1832-3.
3. Ifergane G, Masalha R, Herishanu YO. Transient hemichorea/hemiballismus associated with new onset hyperglycemia. Can J Neurol Sci 2001;28:365-8.
4. Chang CV, Felicio AC, Godeiro Cde O Jr, Matsubara LS, Duarte DR, Ferraz HB, Okoshi MP. Chorea-ballism as a manifestation of decompensated type 2 diabetes mellitus. Am J Med Sci 2007;333:175-7.
5. Lai PH, Tien RD, Chang MH, Teng MM, Yang CF, Pan HB, Chen C, Lirng JF, Kong KW. Chorea-ballismus with nonketotic hyperglycemia in primary diabetes mellitus. AJNR Am J Neuroradiol 1996;17:1057-64.
6. Lin JJ, Chang MK. Hemiballism-hemichorea and non-ketotic hyperglycaemia. J Neurol Neurosurg Psychiatry 1994;57:748-50.
7. Awasthi D, Tiwari AK, Upadhyaya A, Singh B, Tomar GS. Ketotic hyperglycemia with movement disorder. J Emerg Trauma Shock 2012;5:90-1.
8. Dewey RB Jr, Jankovic J. Hemiballism-hemichorea. Clinical and pharmacologic findings in 21 patients. Arch Neurol 1989;46:862-7.
9. Oh SH, Lee KY, Im JH, Lee MS. Chorea associated with non-ketotic hyperglycemia and hyperintensity basal ganglia lesion on T1-weighted brain MRI study: a meta-analysis of 53 cases including four present cases. J Neurol Sci 2002;200:57-62.
10. Fujioka M, Okuchi K, Hiramatsu KI, Sakaki T, Sakaguchi S, Ishii Y. Specific changes in human brain after hypoglycemic injury. Stroke 1997;28:584-7.
11. Krieger D, Krieger S, Jansen O, Gass P, Theilmann L, Lichtnecker H. Manganese and chronic hepatic encephalopathy. Lancet 1995;346:270-4.
12. Fujioka M, Okuchi K, Sakaki T, Hiramatsu K, Miyamoto S, Iwasaki S. Specific changes in human brain following reperfusion after cardiac arrest. Stroke 1994;25:2091-5.
13. Lee BC, Hwang SH, Chang GY. Hemiballismus-hemichorea in older diabetic women: a clinical syndrome with MRI correlation. Neurology 1999;52:646-8.
14. Park CH, Lee DH, Yun M, Park S, Lee JD, Choi IS. Imaging evidence of basal ganglia pathology in hemi choreoballistic movement of the patient with nonketotic hyperglycemia: case report with serial follow up of neuroimages. J Korean Neurol Assoc 2005;23:117-20.
15. Kim HJ, Moon WJ, Oh J, Lee IK, Kim HY, Han SH. Subthalamic lesion on MR imaging in a patient with nonketotic hyperglycemia-induced hemiballism. AJNR Am J Neuroradiol 2008;29:526-7.
16. Shin HR, Kim JH, Park MY. Generalized chorea-

ballismus associated with nonketotic hyperglycemia in diabetes mellitus: a case report. Yeungnam Univ J Med 2002;19:136-43.
17. Soysal DE, Gelen B, Hızar S, Pekdiker M, Tekesin E, Beckmann Y, Karakus V. Monoballism associated with newly onset ketotic hyperglycemia. Case Rep Endocrinol 2012;2012:202708.
18. Watanabe C, Oishi T, Yamamoto T, Sasaki K, Tosaka M, Sato T, Kobayashi H, Takayama S, Sato A, Iwata M, Uchigata Y, Iwamoto Y. Chorea and Broca aphasia induced by diabetic ketoacidosis in a type 1 diabetic patient diagnosed as Moyamoya disease. Diabetes Res Clin Pract 2005;67:180-5.