CASE REPORT

양측 상지에 발생한 허혈성 일측사지 신경병증: 혈액투석을 위한 혈관통로 조성술의 합병증

송 단

순천향대학교 의과대학 서울병원 외과

Ischemic Monomelic Neuropathy of Both Upper Extremity: A Complication of Hemodialysis Access Procedure

Dan Song

Department of Surgery, Soonchunhyang University Seoul Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, Seoul, Korea

The vascular access for hemodialysis is 'life line' for end stage renal failure patients. Ischemic monomelic neuropathy is a rare complication of vascular access procedure by shunting of blood or due to acute noncompressive occlusion of the major proximal limb artery. And this is important complication, which can lead to severe and irreversible disability. Early diagnosis and treatment of this complication is essential to prevent irreversible disability. This complication mainly occurs in diabetic patients with evidence of peripheral neuropathy and vasculitis. Author report a case of ischemic monomelic neuropathy occurring in a chronic renal failure patient following arteriovenous graft placement in upper arm for permanent hemodialysis.

Keywords: Ischemic monomelic neuropathy; Vascular access; Hemodialysis

서 론

혈관통로(vascular access)는 영구적인 혈액투석이 필요한 말기 신부전 환자에게서 생명선이나 다름없다. 혈액투석 환자가 적절한 투석을 받기 위해서는 혈관통로의 확보와 유지가 필수적이다. 혈관통로가 적절하지 못할 때 환자는 투석량의 부족으로 인한 여러 불편감을 호소할 수 있으며 더 나아가 심각한 합병증을 수반하여 환자의 수명에도 영향을 미치게 된다. 특히 협착, 폐색, 감염 그리고 드물게 사지허혈증과 같은 혈관 합병증이 발생하여 대부분 입원이나 수술을 요하게 되어 이로 인한 경제적, 심리적 부담을 초래하게 된다. 이 중 허혈성 일측사지 신경병증(ischemic monomelic neuropathy, IMN)은 굉장히 드문 합병증의 하나로 혈액의 이동(shunting) 혹은 사지 기시부 큰 동맥의 급성 비압박성 폐쇄로 인해 발생한 허

혈성 신경병증의 흔하지 않은 형태이다. 이러한 IMN은 대부분 말초신경병증이 있는 당뇨 환자에서 발생되며, 정중신경, 요골신경 및 척골신경의 급성 혹은 비가역적 기능장애가 발생된다. 증상은 말단 스틸증후군(steel syndrome)과 비슷하지만 심각한 조직괴사는 발생되지 않는다는 점이 다르다. 이에 순천향대학교 의과대학 서울병원 외과에서 상완에 인조혈관을 이용한 동정맥루 형성술 후 발생한 IMN 1예를 보고하고자 한다.

증 례

44세 여자 환자로 20년간 당뇨와 15년간 고혈압의 과거력이 있었고, 당뇨에 의한 합병증으로 말기 신부전이 발생하여 내원 1년 전과 6개월 전에 좌측 상지에 각각 두 차례의 동정맥루 형성술을 받았으

Correspondence to: Dan Song

Department of Surgery, Soonchunhyang University Hospital, Soonchunhyang University College of Medicine, 59 Daesagwan-ro, Yongsan-gu, Seoul 140-743, Korea

Tel: +82-2-709-9490, Fax: +82-2-790-0394, E-mail: backsa7@gmail.com

Received: Aug. 4, 2014 / Accepted after revision: Oct. 8, 2014

© 2014 Soonchunhyang Medical Research Institute

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>).

Fig. 1. Right brachial (A-C) and Lt brachial (D-F) angiogram: showing stenosis of left radial artery (black arrow, F) and right radial (white arrow, C) and ulna (black arrow, C) artery.

나 모두 일차성 실패로 현재 우측 내경정맥을 통한 중심정맥 삽관으로 투석 중이며, 혈액투석을 위한 영구적 혈관통로를 만들기 위해 순천향대학교 의과대학 서울병원에 전원되었다. 수술 전 환자의 혈액검사 등에서는 이상소견이 없었으며 알렌테스트(Allen test)도 정상이었다. 혈관초음파(duplex ultrasonography)에서 자가 동정맥루를 만들만한 정맥은 없었으며, 동맥의 협착이나 기타 이상소견은 없었고, 양측 정맥촬영술에서 양측 두피정맥은 매우 가늘었으며 중심정맥 협착소견은 없었다. 수술은 좌측 상완에 인조혈관을 이용한 동정맥루를 형성하기로 결정하고, 전신마취하에 상완동맥과 액와정맥을 연결한 인조혈관 동정맥루를 만들고 thrill이 좋은 것을 확인한 후에 수술을 마쳤다. 수술을 마치고 병동으로 이송된 환자는 수술 후 지속적인 손 저림과 팔 전체의 동통과 함께 손의 운동장애를 호소하였다. 스틸증후군으로 생각되어 먼저 응급수술을 결정하고 환자를 수술 방으로 옮겨 동맥과 인조혈관 문합 부위를 다시 열어 동맥 문합 부위의 크기를 줄였다. 수술 직후 환자는 증상이 약간 호전되었다. 수술 후 1일째 환자의 증상은 더 이상 호전이 없으며, 동측 상지의 동통과 저림현상이 더 심해지고 손의 운동장애가 더 심해지는 양상을 보여 인조혈관 동정맥루를 폐쇄하였다. 동정맥루 폐쇄 후 환자의 증상 중 손 저림 등은 약간의 호전은 있었으나 운동장애는 호전이 없어 보였다. 수술 후 4일째 상완동맥촬영술을 시행해보니 좌측 상부 요골동맥 협착이 관찰되었고 우측 요

Sensory NCS

Nerve / Sites	Lat. ms	Amp Pk-Pk μ V	Amp.1-2 μ V
R MEDIAN - II digit			
1. wrist	4.75	2.9	3.5
2. palm	-	-	-
L MEDIAN - II digit			
1. wrist	-	-	-
2. palm	-	-	-
R ULNAR			
1. wrist	-	-	-
L ULNAR			
1. Wrist	-	-	-

Motor NCS

Nerve / Sites	Onset Lat ms	Pk Amp mV	Amp.2-4 mV	Distance cm	Velocity m/s
L-MEDIAN - APB					
1. Wrist	4.95	5.0	7.5		
2. Elbow	9.85	1.4	2.1	21	42.9
R-MEDIAN - APB					
1. Wrist	4.65	6.5	8.7		
2. Elbow	9.45	5.3	6.9	21	43.7
L ULNAR - ADM					
1. Wrist	4.00	2.5	3.9		
2. B.Elbow	8.50	2.2	3.4	20	44.4
R ULNAR - ADM					
1. Wrist	3.55	6.4	9.4		
2. B.Elbow	8.65	4.7	7.1	21.5	42.2

Needle EMG

Fig. 2. Sensory nerve conduction studies (NCS, A) of the left median nerve: Loss of the compound sensory action potential 24 hours after hemodialysis access placement. Motor nerve conduction studies (NCS, B) of the left median nerve 24 hours after hemodialysis access placement: More than 50% loss of the compound motor action potential stimulated at the elbow compared with the distally stimulated response (conduction block). Needle EMG of both abductor pollicis brevis, 1st dorsal interossei, flexor carpi radialis, biceps, triceps paraspinalis muscle was done (C). Insertional activity was increase at both flexor carpi radialis, abductor pollicis brevis, and lt 1st dorsal interossei. This study is suggestive with peripheral polyneuropathy, clinically such as, ischemic monomelic neuropathy and suspicious of left median neuropathy, at or around elbow level, incomplete in nature.

굴동맥 및 척골동맥 협착이 관찰되었다(Fig. 1). 환자는 여전히 미미한 손 저림증상과 손의 중등도 운동장애를 지속적으로 호소하였다. 첫 수술 후 24일째 우측 상완동맥-액와정맥 간 인조혈관 동정맥루 형성을 결정하고 마찬가지로 전신마취하에 동정맥루 형성을 시행하였다. 수술 후 환자는 첫 수술과 비교할 때 손가락의 동통이나 손 저림증상이 덜했으며 운동장애도 발생하지 않았다. 그러나 2차 수술 후 3일째 환자는 우측 손가락의 점점 더 심해지는 동통 및 손 저림과 손 운동장애를 호소하여 결국 우측 인조혈관 동정맥루도 폐쇄하였다. 2차 수술 후 시행한 양쪽 팔 근전도에서 말초성 다발성 신경병증과 양측 정중신경 및 요골신경, 척골신경에서 감각신경과 운동신경이 현저히 감소된 소견을 보여 양쪽 IMN으로 진단하였고 물리치료를 계속 받게 하였다(Fig. 2). 환자는 2차 수술 후 34일째 좌측 대퇴부 대퇴동맥-대복재정맥 간 인조혈관 동정맥루 형성을 받았으며 대퇴부 인조혈관 형성술 후에는 아무 증상이 없어서 첫 수술로부터 106일째 퇴원하였다. 현재 외래에서 추적검사를 하고 있으며, 양측 팔의 운동 및 감각은 거의 회복된 상태이다.

고 찰

말기 신부전 환자에서 혈관통로는 생명선이라고 불릴 만큼 중요하며 또한 잦은 합병증으로 인한 입원과 치료가 필요하여 Achilles' heel로 표현될 만큼 양면성을 지닌다[1]. 혈액투석을 위한 혈관통로의 유지는 환자들의 이환율과 비용면에서 신장을 대체할 수 있는 가장 좋은 단일요소라고 생각된다. 내과적 치료를 요하는 신부전 말기 환자의 가장 많은 요소는 혈관접근로의 유지에 관한 치료다. 동정맥루 혈전은 가장 흔한 합병증이지만 이런 합병증은 수술적 처치나 경피적 방법으로 평균 6개월 개통률이 60-80% 정도 혈관접근로를 보존한다[2-4].

여러 가지 합병증이 있지만 IMN은 이 중에서도 굉장히 드문 합병증으로 혈액의 이동(shunting) 혹은 사지 기시부 큰 동맥의 급성 비압박성 폐쇄로 인해 발생한 허혈성 신경병증의 흔하지 않은 형태로 정의되며 아래팔 신경(요골신경, 척골신경, 정중신경)에만 국한된 허혈 또는 경색증 손상으로 조직의 허혈보다는 신경손상증상이 더 심한 것으로 알려져 있다. 수술 직후부터 손의 심한 지속적 통증, 감각이상, 손목의 굴신운동이 안되고 손가락의 정교한 근육 운동장애가 심하다. 피부나 근육의 허혈소견은 없으며, 요골동맥이 촉진되고 손은 따뜻하다. 대부분 신경과 영역의 논문에서 발표가 되며 1979년 Bolton 등[5]에 의해 처음 서술되었으며 IMN이란 용어는 1983년 Wilbourn 등[6]에 의해 처음 명명됐다. 그렇지만 이들도 말기 신부전 환자의 혈관통로에 의해 발생된 것으로 보고한 것은 아니다. 1989년 Riggs 등[7]이 말초 혈관질환이 있으면서 당뇨병성 말기 신부전 환자에서 상완에 혈관통로를 만든 후 발생한 IMN을 보고하였다.

이는 상·하지에 있는 여러 신경의 감각과 운동신경의 결가지를 침범하는 말단 축삭병증(axonopathy)으로 이러한 신경들에 적절한 혈액공급이 이루어져야 그 기능과 구조가 유지된다[8]. 그러나 상·하지에 있는 주동맥 근위부의 폐쇄 혹은 혈관통로 수술 후 vasa nervosum의 under-filling 때문에 발생한다고 한다[6,9]. 발생빈도는 대부분의 경우 드문 것으로 발표되는데 이는 진단을 못하거나 잘못된 진단이 되어 정확한 빈도는 알 수 없다. 이는 당뇨병성 신경병증이 있던 환자에서 말초 동맥폐쇄증이나 혹은 과도한 혈관 석회화의 진행이 동반된 환자에서 혈관통로를 만들 경우 자주 관찰된다[7]. 증상은 특징적으로 즉시 발생하는 신경학적 징후와 증상이라고 했다[10]. 일반적으로 증상은 감각신경 이상이 운동신경 이상보다 두드러지게 나타난다. 증상은 요골, 척골 그리고 정중신경의 분포를 따라 손목 신전의 저하와 엄지손가락 부착(apposition) 능력의 감소 등으로 나타나며, 결국에는 기능의 심각한 손실로 인한 갈퀴손 변형(claw hand deformity)으로 변할 수 있다[11]. 전완이나 손 근육의 마비와 약함이 보여지며 손목 하수증(wrist drop)은 두드러진 현상이다. 지각이상(paresthesia), 감각손실(numbsness) 그리고 전완에 존재하는 세 신경의 감각저하가 특징적이다. 그렇지만 손은 대부분 따뜻하며 요골동맥의 촉지가 가능하다. 이와 같이 손의 동통이나 감각 이상이 나타났을 때 감별해야 할 질환으로는 사지 허혈증(vascular steal syndrome), 손목굴곡 증후군(carpal tunnel syndrome), 상처 부위의 혈종 등에 의한 신경압박 그리고 IMN이다. 저자도 첫 번째의 경우 steal syndrome으로 진단하여 동정맥루의 문합 부위 축소를 시행한 후 증상의 호전이 약간 있었으나 다음날 증상이 더욱 심해졌다.

진단은 거의 임상적인 증상과 이학적 검사에서 가능하며, 대부분의 경우 여러 말초신경들의 급성 축색 손실에 기인하는 비가역적 허혈손상에 이르게 된다. 근전도검사를 통하는 것이 진단에 도움이 되며 근전도에서는 축색 소실과 비교적 강력한 전도속도(conduction velocities)에도 감각과 운동신경 자극에 반응이 없거나 낮은 진폭을 나타낸다. 저자의 경우에도 말초 다발성 신경병증이 관찰되었으며, 양측 정중신경, 요골신경 및 척골신경에서 감각신경과 운동신경이 현저히 감소되어있음을 관찰하게 되었다.

치료는 동정맥루의 결찰이나 동정맥루로 가는 혈류량을 줄이기 위한 동정맥루 축소술 등을 통한 허혈증상을 즉시 교정해주는 것을 추천한다[11,12]. 저자의 경우에는 첫 번째 수술 후에는 스틸증후군을 의심하여 혈류량을 줄이는 술식을 시행했으나 실패하여 동정맥루를 결찰하였으며 두 번째 수술 후에는 증상이 생기자 동정맥루를 결찰하였다.

IMN의 예후는 허혈의 정도와 기간에 따라 달라진다. 약한 결손인 경우 동정맥루 교정술(shunt revision)을 통해 빠르게 정상으로 돌아오지만, 완전한 결손인 경우 영구적인 손상이 불가피하다[6,7,10]. 저자의 경우에는 증상의 정도가 중간 정도였고 지속시간

이 길지 않아 환자는 운동이나 감각신경 등이 거의 회복되었다.

IMN은 피부나 근육의 허혈증 없이 포괄적인 신경운동의 기능 장애를 일으키는 급성 허혈로 특징지어지며, 특히 말초 신경병증을 갖고 있는 고령의 여성 당뇨병 환자에서 잘 발생하는 심각한 합병증으로 이런 환자에서 수술 후 잘 관찰하고 증상이 있으면 즉시 동정맥루를 폐쇄하거나 교정술 등의 치료를 해야 할 것이다.

REFERENCES

1. Schwab SJ. Hemodialysis vascular access: the Achilles' heel remains. *Kidney Int* 2007;72:665-6.
2. Brotman DN, Fandos L, Faust GR, Doscher W, Cohen JR. Hemodialysis graft salvage. *J Am Coll Surg* 1994;178:431-4.
3. Sands JJ, Patel S, Plaviak DJ, Miranda CL. Pharmacomechanical thrombolysis with urokinase for treatment of thrombosed hemodialysis access grafts: a comparison with surgical thrombectomy. *ASAIO J* 1994;40:M886-8.
4. Valji K, Bookstein JJ, Roberts AC, Oglevie SB, Pittman C, O'Neill MP. Pulse-spray pharmacomechanical thrombolysis of thrombosed hemodialysis access grafts: long-term experience and comparison of original and current techniques. *AJR Am J Roentgenol* 1995;164:1495-500.
5. Bolton CF, Driedger AA, Lindsay RM. Ischaemic neuropathy in uraemic patients caused by bovine arteriovenous shunt. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1979;42:810-4.
6. Wilbourn AJ, Furlan AJ, Hulley W, Ruschhaupt W. Ischemic monomelic neuropathy. *Neurology* 1983;33:447-51.
7. Riggs JE, Moss AH, Labosky DA, Liput JH, Morgan JJ, Gutmann L. Upper extremity ischemic monomelic neuropathy: a complication of vascular access procedures in uremic diabetic patients. *Neurology* 1989;39:997-8.
8. Dyck PJ. Hypoxic neuropathy: does hypoxia play a role in diabetic neuropathy?: the 1988 Robert Wartenberg lecture. *Neurology* 1989;39:111-8.
9. Rabbani MA, Ahmad B, Shah SM, Ahmad A. Ischemic monomelic neuropathy: a complication of vascular access procedure. *J Pak Med Assoc* 2005;55:400-1.
10. Miles AM. Upper limb ischemia after vascular access surgery: differential diagnosis and management. *Semin Dial* 2000;13:312-5.
11. Miles AM. Vascular steal syndrome and ischaemic monomelic neuropathy: two variants of upper limb ischaemia after haemodialysis vascular access surgery. *Nephrol Dial Transplant* 1999;14:297-300.
12. Rivers SP, Scher LA, Veith FJ. Correction of steal syndrome secondary to hemodialysis access fistulas: a simplified quantitative technique. *Surgery* 1992;112:593-7.