Two Cases of Sleep-Related Painful Erection

Kyoo Ho Cho, Hye Ihn Kim, Kyoung Heo, Yang-Je Cho

Department of Neurology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

수면 중 통증 발기 2례

조규호, 김혜인, 허 경, 조양제

연세대학교 의과대학 신경과학교실

Received July 12, 2016
Revised August 18, 2016
Accepted November 23, 2016

Address for correspondence
Yang-Je Cho, MD, PhD
Department of Neurology,
Yonsei University
College of Medicine,
50-1 Yonsei-ro, Seodaemun-gu,
Seoul 03722, Korea
Tel: +82-2-2228-1600
Fax: +82-2-393-0705
E-mail: chojy@yuhs.ac

Sleep-related painful erection (SRPE) is characterized by deep penile pain accompanied with erection occurring rapid eye movement (REM) movement period. Two (47-year-old and 40-year-old, respectively) male visited with the complaint of painful penile erection occurring during sleep. They had no problems with erection during daytime sexual activities except for mild premature ejaculation in one patient. Urologic inspections revealed no focal abnormalities. Polysomnography with simultaneous penile erection monitoring showed several episodes of awakening with painful erection which are time-locked to onset of REM sleep periods. According to the diagnostic criteria in international classification of sleep disorders, each patient was diagnosed to have chronic, severe SRPE. Despite of a low prevalence of SRPE, this condition should be considered in a patient who presents with nocturnal penile. A polysomnography accompanied with penile erection recording may help confirm diagnosis.

J Sleep Med 2016;13(2):70-73

Key Words: Sleep related painful erection, Nocturnal tumescence, Polysomnography.

수면 연관 통증 발기는 수면 중, 특히 렘수면 때 성기에 통증이 발생하는 질환이다.¹ 환자는 부분 혹은 완전한 발기와 관련된 통증을 경험하게 되어 반복적으로 깨는 등의 수면 방해를 받게 되고, 불면과 불안, 자극 과민, 주간 졸음이 초래되기도 한다.² 매우 드문 질환으로서 성적인 문제가 있는 환자의 1%에서 발생한다고 보고되었으며,³ 어느 나이대에서도 발생할 수 있지만 40세 이상에서 잘 발병한다고 알려져 있다. International classification of sleep disorders(ICSD-2)에서는 사건 수면(parasomnia)의 하나로 진단할 수 있으며 진단 기준은 아래와 같다:

- 1) 수면 중에 통증이 있는 발기를 호소한다.
- 2) 깨어 있을 때 발기 시에는 통증이 없다.
- 3) 수면다원검사에서 렘수면에서 발기와 연관된 각성이 있다.
- 4) 증상이 다른 질환이나 정신 상태에 관련된 것이 아니다.
- 5) 다른 수면 질환이 없다(예를 들면 약물은 있을 수 있으나, 증상을 설명하지 못한다).

나, 증상을 설명하지 못한다).

항목들 중 1), 2), 4), 5)를 만족하는 것이 최소한의 진단 기준이고, 3) 항목의 수면다원검사를 통해 정확한 진단이 가능하다. 본 질환의 국내 보고가 없는 상태에서, 저자들은 수면다원검사를 통해 수면 중 통증 발기로 진단된 두 증례를 경험한 바, 이에 대한 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

증례 1

47세 남자가 수면 중에 발생하는 통증을 동반한 과도한 발기 증상으로 비뇨기과에 왔다. 증상 삽화는 6년 전에 시작되어 하룻밤 동안에도 두세 차례 발생하였으며, 이 증상 때문에 자주 잠에서 깨어 수면에 방해를 받는다고 하였다. 성관계 시와 깨어있는 동안의 발기 시에는 통증이 없었으며, 요로결석의 병력과 간헐적 조루 증상 외에는 특별한 비뇨기과적 문제가 없었다. 비뇨기과적 진찰 소견은 정상이었고 전혈구 및 화학 검사에서는 고혈당증과 이상지질혈증(glucose 121 mg/dL, cholesterol 249 mg/dL, triglyceride 470 mg/

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>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

dL) 외에 특이 사항이 없었으며, 호르몬 검사(FSH, LH, testosterone, estrogen E2, prolactin) 역시 정상이었다. 환자는 수면 중에만 반복되는 증상에 대한 사건 수면 감별을 위해 신경과로 의뢰되었고, 야간 음경발기검사(RigiScan, Timm Medical Technologies, Eden Prairie, MN, USA)를 동반한 수면다원검사를 실시하였다. 수면 구조는 N1 수면이 38.6%, N2와 렘수면이 각각 40.4%, 20.9%로 이루어졌고, N3 수면은 없었다. 수면 효율은 83%로 감소되었고, 각성 지수가 41.3/hr로 증가되어 있었다. 무호흡-저호흡 지수는 16.4/hr였으며, 산소 포화도는 최저 89.8%까지 저하되었다. 음경 발기 기록상에서, 총 4회의 발기 삽화가 관찰되었는데, 세 번째와 네 번째 삽화에서는 통증으로 인하여 잠에서 깨는 증상이 발생하였고, 이들은 수면다원검사의 렘수면 단계와 시간적으로 일치하였다(Fig. 1). 검사 후 환자에게 escitalopram 10 mg을 처방하였으나, 이후 내원하지 않아 추적 관찰할 수 없었다.

의도치 않은 발기 때문에 병원에 왔다. 11세 때부터 시작되어 매일 반복되었다고 하며, 심한 통증은 없었으나 이 증상 때문에 수면에 방해를 받았으며, 주간에 피곤하다고 호소하였다. 다른 비뇨기과적 증상이나 징후는 없었으며 전혈구 검사, 일반 화학 검사, 성호르몬 검사 역시 정상이었다. 음경발기검사와 함께 수면다원검사를 실시하였다. N1, N2, 렘수면 비율은 정상이었음(각각 8.4%, 64.8%, 25.5%), N3 수면이 감소되어 있었다(1.3%). 수면 효율은 69.8%, 각성 지수는 13.1/hr, 호흡-무호흡 지수는 0.4/hr였다. 검사 중 총 4회의 발기가 관찰되었고, 각성 단계가 아닌 수면 중 발생한 두 번의 경우는 모두 렘수면에서 발생하였다. 이 두 번의 발기는 약 한 시간씩 지속되었다(Fig. 2). 환자에게 escitalopram, propranolol, amitriptyline 투약을 시도하였으나 증상에 큰 호전이 없었다.

고 찰

증례 2

40세 남자가 수면 중에 발생하는 한 시간 정도 지속되는

수면 중 발기는 정상적인 현상이며, 성적으로 문제가 없는 남자는 수면 주기에 따라 수차례 발기가 발생하게 된다. 발

Figure 1. Polysomnography with RigiScan from the first patient. There were two episodes with painful erection (increase in rigidity and circumference) which are time-locked to the onset of REM sleep periods and terminating with patient's subjective symptom (awakening with painful sense in his penis, lightning marks). rig: rigidity changes (%), tum: circumference changes, TIP: tip of the penis, BASE: base of the penis, REM: rapid eye movement.

Figure 2. Polysomnography with Rigiscan from the second patient. The 4 episodes of penile tumescence during sleep period, in which later two co-occurred with the onset of REM sleep periods. Each tumescence event ended with awakening with complaining penile pain (lightning marks). REM: rapid eye movement.

기의 가장 직접적인 기전은 척수의 요추 신경 2, 3, 4번에서 부교감 신경이 아세틸콜린(acetylcholine)과 산화질소(nitric oxide)를 분비하여 발기 관련 조직의 혈관과 평활근이 이완 되는 것이며, 여기에 좌골해면체근(ischiocavernosus)과 구면해면체근(bulbospongiosus)에는 체성 신경이 분포하여 수 의적인 움직임이 음경의 강직에 도움을 주게 된다. 반대로 흉추 신경 11번부터 요추 신경 2번까지의 척수의 중간가쪽핵 에서 나오는 교감신경은 발기 이완과 사정을 일으키는 역할을 하게 된다. 뇌간에서는 연수 거대세포핵(medullary nucleus paragigantocellularis, nPGi) 안의 세로토닌성 뉴런이 교감신 경을 자극하여 발기를 억제하는 기능을 하며, 시상하부의 뇌 실방핵(paraventricular nucleus, PVN)은 옥시토신을 분비하 는 뉴런이 부교감 신경에 연결되어 발기를 촉진하게 된다.⁴

시상하부의 내측 시삭전핵(medial preoptic area) 부분은 각성 시의 성적 행동과 관련된 발기와 관련이 있는 것으로 알려져 있으며, 깊은 수면을 촉진하는 부분으로 알려진 외측 (lateral preoptic) 영역은 그중 일부분이 렘수면 시 활성화되 어 시상하부의 nPGi와 PVN을 경유하여 발기를 조절하는 것으로 생각되는데, 이에 대한 명확한 증거는 아직 없는 상 태이다.⁵

수면 연관 통증 발기의 명확한 유발 인자나 유전적 소인은 현재까지 알려진 바가 없으며, 자율신경의 조절 이상,⁶ 발기 를 조절하는 해부학적 구조의 병변,⁷ 국소적 신경전달물질의 이상 등이 그 기전이라고 추측되고 있다.⁸ 통증이 왜 발생하

는지에 대해서는, 좌골해면체근과 구면해면체근이 도플러 초음파에서 비대가 있는 보고를 미루어 볼 때 이 근육들의 경련과 관련이 있을 것으로 생각된다.²

치료 약물은 크게 세 가지 기전으로 분류할 수 있는데, 발 기 자체를 억제하는 약물(gosereline, leuproleline, ketoconazole, estrogen), 렘수면을 억제하는 약물(tricyclic antidepressants, selective serotonin reuptake inhibitors, benzodiazepine, clozapine),⁹ 그리고 골반저근의 이완을 돕는 약물(baclofen) 등을 투여해 볼 수 있다. 이들 중 발기를 억제하는 약 물은 성적으로 활발한 생활을 하는 환자에게 쓰기가 어려운 점이 있으며, 렘수면을 억제하는 약물은 주로 효과가 수개월 밖에 지속되지 않는 것으로 보고되어 있다. 반면 clozapine, baclofen은 각각 9, 12개월까지 효과가 있다고 알려져 있어, 이들 약물을 사용하는 것이 추천된다.¹⁰

본 환자들은 수면 중 통증 발기의 ICSD-2 임상적 진단 기 준에 해당하였고, 음경발기검사와 수면다원검사를 동시에 실시해서 진단을 확인하였다. 본 환자와 같이 객관적인 평 가는 되지 않았지만 수면 효율의 저하가 나타날 수 있고, 불 안이나 주간 졸음 현상이 동반될 수 있어, 이에 대한 적절한 치료가 필요하다고 생각된다. 이러한 환자들의 진찰에는 다 른 비뇨기과적 질환(포경, 페이로니병)과 감별이 필수적이며,² 증례의 환자들에게서는 비뇨기과 진료를 통해 배제할 수 있었다. 환자들에게 공통적으로 세로토닌 재흡수 억제제 를 포함한 약물을 사용하였는데 추적 관찰된 한 환자에게서

효과가 미미하였고, 문헌에 추천된 다른 약물을 시도해 보려 했으나 2개월 후 더 이상 내원하지 않아 추가적인 치료적 관찰이 불가하였다.

수면 연관 통증 발기는 드물지만 특이적인 증상을 갖고 있으며, 이 질환이 수면 건강에 끼치는 영향을 고려할 때 관심을 갖고 적절한 진단과 약물 치료를 실시할 수 있어야 하겠다.

REFERENCES

1. Postuma RB, Gagnon JF, Rompré S, Montplaisir JY. Severity of REM atonia loss in idiopathic REM sleep behavior disorder predicts Parkinson disease. *Neurology* 2010;74:239-244.
2. Calvet U. Painful nocturnal erection. *Sleep Med Rev* 1999;3:47-57.
3. Ferini-Strambi L, Oldani A, Zucconi M, et al. Sleep-related painful erections: clinical and polysomnographic features. *J Sleep Res* 1996;5:195-197.
4. Lavoisier P, Proulx J, Courtois F, De Carufel F, Durand LG. Relationship between perineal muscle contractions, penile tumescence, and penile rigidity during nocturnal erections. *J Urol* 1988;139:176-179.
5. Schmidt MH, Schmidt HS. Sleep-related erections: neural mechanisms and clinical significance. *Curr Neurol Neurosci Rep* 2004;4:170-178.
6. Ferini-Strambi L, Montorsi F, Zucconi M, Oldani A, Smirne S, Rigatti P. Cardiac autonomic nervous activity in sleep-related painful erections. *Sleep* 1996;19:136-138.
7. Suh DD, Yang CC, Clowers DE. Nocturnal penile tumescence and effects of complete spinal cord injury: possible physiologic mechanisms. *Urology* 2003;61:184-189.
8. Karsenty G, Werth E, Knapp PA, Curt A, Schurch B, Bassetti CL. Sleep-related painful erections. *Nat Clin Pract Urol* 2005;2:256-260; quiz 261.
9. Moon HJ, Nam H. Treatment of REM sleep behavior disorder. *J Korean Sleep Res Soc* 2009;6:24-28.
10. van Driel MF, Beck JJ, Elzevier HW, van der Hoeven JH, Nijman JM. The treatment of sleep-related painful erections. *J Sex Med* 2008;5:909-918.