

성인에서 폐쇄성 수면 무호흡을 동반한 거대 설편도 비대 1례

단국대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

한현주 · 이동준 · 모지훈 · 이상준

A Case of Huge Lingual Tonsillar Hypertrophy Causing Obstructive Sleep Apnea in Adult

Hyun-Ju Han, MD, Dong Jun Lee, MD, Ji-Hun Mo, MD, PhD and Sang Joon Lee, MD, PhD

Department of Otorhinolaryngology-Head & Neck Surgery, Dankook University College of Medicine, Cheonan, Korea

Obstructive sleep apnea is characterized by repeated episodes of obstructive apnea and hypopnea. Lingual tonsillar hypertrophy causing obstructive symptoms is a rare disease in adults. Recently, we experienced a case of obstructive sleep apnea due to massive lingual tonsillar hypertrophy. The patient had tonsillectomy as a child and underwent adenoidectomy three years prior to the current presentation due to snoring and sleep apnea. However, symptoms did not improve and were recently aggravated. The upper airway evaluation and polysomnography revealed excessive lingual tonsillar hypertrophy and severe obstructive sleep apnea. An enlarged lingual tonsil was successfully removed using a Coblator. No recurrence was observed, and the obstructive sleep apnea was resolved postoperatively.

KEY WORDS: Tonsil · Hypertrophy · Lingual · Obstructive sleep apnea.

서 론

수면 무호흡 증후군은 무호흡 정도에 따라 폐쇄성과 중추성, 혼합형으로 나뉜다. 이중 폐쇄성 수면 무호흡증은 부분적 또는 완전한 상기도 폐쇄에 의해 호흡 노력에도 호흡이 정지되는 경우로 한국에서 3.2~4.5%의 유병율을 가지는 흔한 질환이다.¹⁾ 또한 폐쇄성 수면 무호흡증은 방치되었을 경우 피로와 주간 졸리움 등 삶의 질을 저하시키며 심혈관계 합병증을 유발할 수 있어 그 진단과 치료에 대하여 다양한 연구가 진행되고 있다. 원인으로는 상기도의 해부학적 구조, 자극에 대한 상기도 이완근의 반응, 중추성 호흡조절, 비만 등이 폐쇄성 수면무호흡증의 발생에 영향을 미치는 주요 인자로 여겨진다.

일반적으로 림프 조직의 비대가 상기도의 기계적 폐쇄를 야기하는 것은 소아 및 청소년에서는 종종 보이나 성인에서 드문 경우로 저자들은 설편도비대증을 가진 성인 고도 수면 무호흡 환자에서 설편도 절제술을 통해 코골이와 수면 무호흡을 성공적으로 개선하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

27세 여자 환자가 수년 전부터 발생한 코골이와 음성 변화, 수면 무호흡을 주소로 본원 이비인후과 외래에 내원하였다. 환자는 키 168.0 cm, 몸무게 105 kg, 신체질량지수 37.2 kg/m²의 고도 비만으로 최근에 급격한 체중 증가는 없었다. 깨어

논문접수일: 2015년 10월 6일 / 수정완료일: 2015년 12월 30일 / 심사완료일: 2016년 2월 22일

교신저자: 이상준, 31116 충남 천안시 동남구 망향로 201 단국대학교 의과대학 이비인후-두경부외과학교실

Tel: +82-41-550-3976, Fax: +82-41-556-1090, E-mail: lsj72@dankook.ac.kr

있을 때는 호흡 곤란이 없었으며 과거력상 6세경 편도 절제술을 시행받았고 3년전 수면 무호흡을 주소로 타병원에 내원 후 아데노이드 절제술을 시행 받은 병력이 있었다.

이학적 검사상 비중격 만곡증이나 비갑개의 비후 소견은 없었으며 비강내 구조학적 폐쇄를 야기할 수 있는 다른 이상은 보이지 않았다. 아데노이드는 관찰되지 않았고 입을 벌렸을 때 좁은 후구개와 설근부부터 비대된 설편도가 관찰되었으며(Fig. 1), 이로 인해 구개수가 관찰되지 않는 Friedman palate position Grade III이었다.²⁾ 내시경 소견 상 구인두와 하인두 부위를 비대한 설편도가 막고 있었으며 이로 인해 지속 발성 시에도 성문 상부가 관찰되지 않았다. 컴퓨터단층촬영상 $3.8 \times 3.4 \times 4.2$ cm의 연조직이 발견되었으며 구인두와 하인두에 걸쳐 전체적 기도의 직경이 좁아져 있었다(Fig. 2). 우측 갑상선에서 2.4×2.4 cm 크기의 고형 낭성 결절이 발견되어 갑상선 세침 흡입 검사를 시행하였으며 조직검사 결과 비정형 세포(atypia of undetermined significance, AUS)로 확인되었다. 과거력에서 특이 병력이 없었으며 가족 중 유사

한 병력을 가진 사람은 없었다. 수술 전 시행한 수면다원검사상 시간 당 호흡곤란지수 46.7회, 무호흡-저호흡지수 46.2회, 최저 산소포화도 62%로 고도의 수면 무호흡증으로 진단되었다. 음향학적 검사에서 Jitter 0.625%, Shimmer 5.163%였으며, 기도의 변화로 인한 공명의 이상을 보이고 있었다.

이에 코블레이터를 이용한 설편도 제거술 및 우측 갑상선엽 절제술을 시행하였다. 후두인두의 시야가 확보되지 않아 삼관이 어려운 관계로 안전성을 고려하여 국소마취 하에 기관절개술 시행 후 전신마취로 전환하여 수술을 시행하였다. 먼저 우측 갑상선엽 절제술을 시행한 후 양와위에서 경부를 신전시킨 후 경구 접근을 통해 설편도를 노출시키고 설편도에서 조직의 일부를 채취하여 동결절편 조직검사를 시행하였다. 동결 절편 조직검사에서 정상 편도 조직의 만성 염증 소견을 확인한 후 코블레이터를 이용하여 설근부부터 후두개까지 감싸고 있는 연조직을 제거하였다. 육안상 절제된 조직은 탄성이 있는 정상 설편도 조직으로 보였으며, 병리학적으로 눈에 띄게 과 증식된 여포상 림프 조직이 확인되었

Fig. 1. Preoperative endoscopic findings. Nasopharyngeal airway was patent with mild tubal tonsillar hypertrophy around eustachian tube orifice (A). Enlarged lingual tonsil on tongue base was observed and the larynx could not be seen because of large lingual tonsil (B).

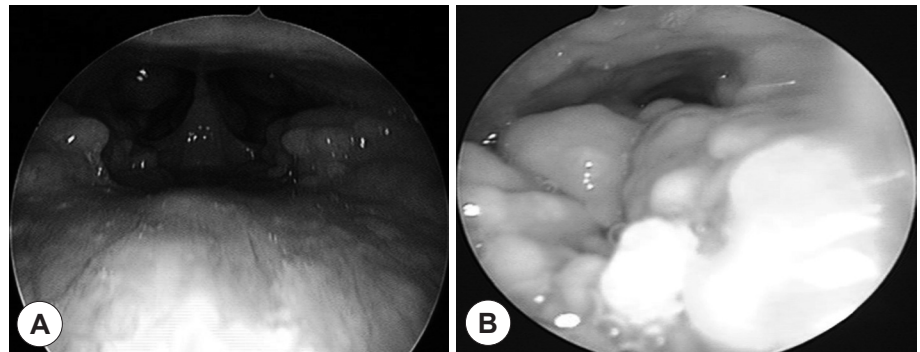
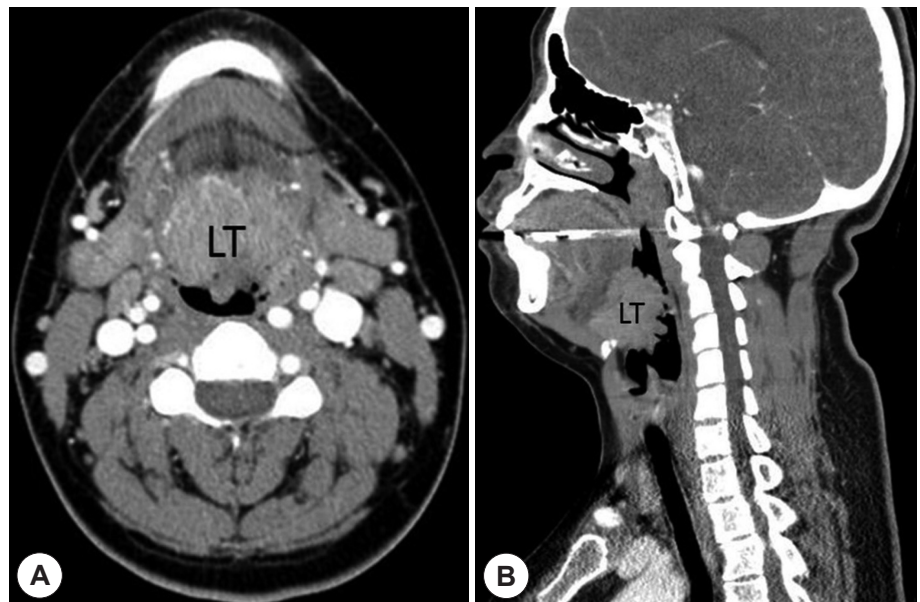


Fig. 2. Preoperative contrast-enhanced CT showed the hypertrophy of lingual tonsil (LT) which markedly obstructed the airway. Axial (A) and sagittal view (B).



다(Fig. 3A). 조직의 중심에는 정상보다 증식된 배중심(germinal center)과 이에 비해 감소된 여포상 피질이 보였다(Fig. 3B). 환자는 술 후 증상 호전되다가 술 후 14일째 설근부에서 과도한 출혈이 발생하여 전신마취 하에 코블레이터를 이용하여 지혈을 시행하였고, 혈색소 수치가 6.8 g/dL로 떨어

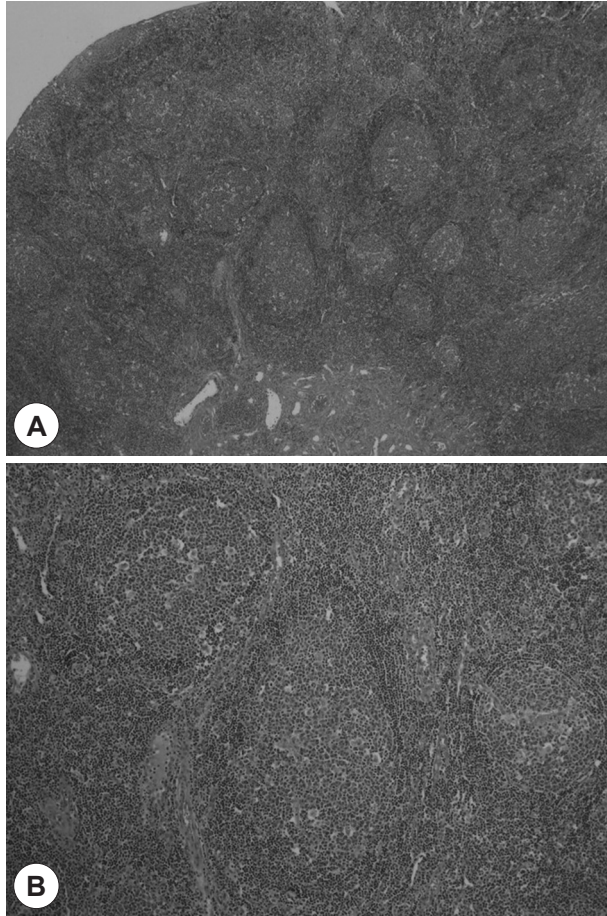


Fig. 3. Pathologic findings. On microscopic view, reactive follicles with normal lymphoid tissue were identified (H&E, ×25) (A). The reactive lymphoid tissue showed excessive increase of the germinal center (H&E, ×50) (B).

어져 수혈 시행하였다. 술 후 35일째 특별한 합병증 없이 퇴원하였다.

술 후 3개월째 시행한 수면다원검사상 는 시간 당 호흡곤란지수는 46.7회에서 5.5회, 무호흡-저호흡지수는 46.2회에서 2.2회, 최저 산소포화도는 62%에서 90%로 호전된 소견을 보였으며 코골이 및 폐쇄성 음성도 호전되었다(Table 1). 음향학적 검사에서 Jitter는 0.625%에서 0.392%, Shimmer는 5.163%에서 2.743%로 개선되었으며 전반적 호흡 발생 기능도 호전되었다. 술 후 5개월째 시행한 경부 측면 촬영 및 내시경검사에서 재발 없이 설편도가 감소된 상태를 유지하는 것을 확인하였다(Fig. 4).

고 찰

수면 무호흡 증후군은 고령과 비만 환자에서 더 흔하며 30~49세의 남성의 약 10%, 여성의 3%에서, 50~70세의 남성 중 약 17%, 여성의 약 9%에서 폐쇄성 수면 무호흡 증후군이 발견된다.³⁾ 환자는 피로 및 집중력 저하, 주간 졸리움 등의 증상을 호소하며 치료하지 않을 경우 교통사고 및 작업 중 사고률이 증가할 수 있다.⁴⁾ 상기도 폐쇄, 특히 설근부의 후부를 막아 심혈관계 합병증을 유발할 수 있으며⁵⁾ 기도 삼관의 어려움으로 전신마취의 위험성 또한 가지고 있다.⁶⁾ 따라서 수면 무호흡이 동반된 설편도 비대 환자에서 설편도의 노출과 제거는 더 큰 수술적 위험성을 동반하고 있다.⁷⁾ 환자는

Table 1. Preoperative and postoperative polysomnography in subjects undergoing lingual tonsillectomy

	Preoperative	Postoperative
Apnea-hypopnea index	46.2	2.2
Respiratory distress index	46.7	5.5
Snoring time (%)	61.9	10.5
Mean O2 saturation (%)	80	95
Lowest O2 saturation (%)	62	90

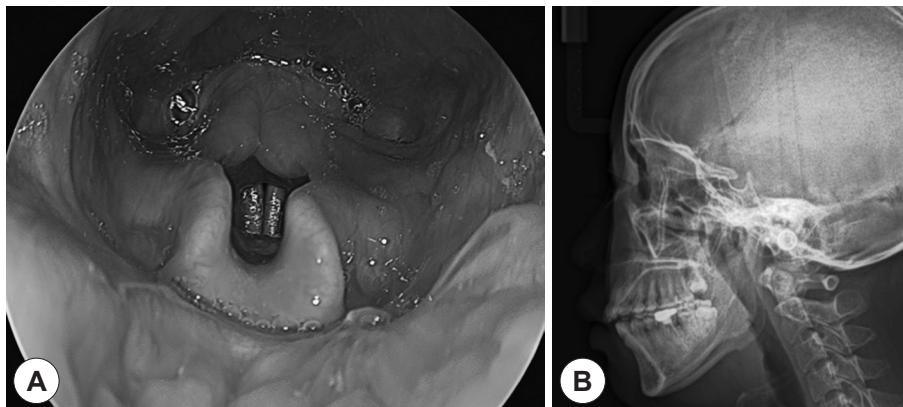


Fig. 4. Endoscopic findings (A) and cephalometric lateral radiograph (B) at 5 months after operation. The endoscopic findings showed reduced lingual tonsil and the normal laryngeal column. The cephalometric lateral radiograph showed that the airway is patent.

수술 전 설근부부터 후두부까지 내시경을 통한 검사가 필수이며 수면다원검사를 통해 수면 무호흡 증후군의 정도를 평가하는 것이 필요하다.

설편도는 발다이어 고리(Waldeyer's ring)를 구성하는 림프 조직으로 조직학적으로 구개편도와 비슷하며 설근부에 위치하여 급성 염증 및 심한 비대는 심각한 기도 폐쇄를 야기할 수 있다.⁸⁾ 수면무호흡증을 유발하는 설편도 비대는 성인에서는 매우 드문 질환으로 해외 여러 논문에서 설편도 비대의 임상 양상 및 치료 결과에 대한 보고가 있으나 소아나 청소년에서 발생한 경우가 대부분으로 조직학적으로 다른 병인 없이 성인의 설편도 비대를 보인 증례는 매우 드물다. 국내에서는 17세 여아에서 발생한 설편도 비대증 1례가 보고되었다.⁸⁻¹²⁾ 설편도 비대의 원인으로는 알레르기, 약물 남용, 만성감염 등이 있고 편도 및 아데노이드 절제술 후에 보상적으로 설편도의 비대가 나타날 수 있다는 보고도 있으며 최근 연구에서는 인후두 위산 역류증과의 연관성이 밝혀진 바 있다.⁹⁾¹³⁾ 그러나 Breitmeier 등은 497명을 대상으로 부검을 시행하여 설편도의 비대와 편도절제술과의 연관성을 분석하였는데 설편도 비대는 오직 3.2%에서만 발견되어 편도절제술은 원인으로 볼 수 없다고 보고하였다.⁶⁾ 설편도 비대의 원인이 악성 종양 및 육아종성 질환에 있을 수 있으므로 치료 전 결핵을 포함한 다른 질환의 이환 여부를 확인하는 것이 필요하다.¹⁴⁾ Fricke 등은 자기공명영상을 시행하여 설편도의 전후 직경을 측정하는 것을 가장 정확한 평가 방법으로 보고 있으며 10 mm 이상의 크기를 가지거나 혀의 후부 및 후인두부에 인접한 경우를 중등도 이상의 설편도 비대 소견으로 볼 수 있다고 하였다.¹⁵⁾

설편도 절제술은 후두개 계곡(valleculae)에 대한 시야 확보 및 접근이 수술에서 가장 중요하며 절제 방법으로는 올가미(snare)와 펀치(punch)를 이용한 박리, 냉동요법, 이산화탄소 레이저(CO₂ laser), 전기 소작기, 흡인 소작기, 코블레이터를 사용한 설편도 절제술의 연구 결과가 보고되고 있다.⁷⁻¹¹⁾ Robinson 등은 18명의 환자에서 코블레이터를 이용하여 설편도를 제거하였으며, 술후 출혈이 없었고 재수술도 10%로 낮음을 보고하였다. 하지만 합병증으로 15%에서 미각장애가 발생하였다.⁷⁾ Abdel-Aziz 등은 편도 및 아데노이드 절제술 후 설편도 비대를 보인 5세에서 16세 사이의 소아 16명에서 설편도절제술을 시행하였고 10명에서 증상이 완전히 호전됨을 보고하였다. 합병증으로는 3명에서 술후 혀의 부종으로 인한 기도폐쇄가 있었으며, 불완전 호전을 보인 6명 중 5명에서 다운증후군 등의 선천성 기형이나 비만과 같은 위험 요인이 존재하였다.⁸⁾ Acar 등은 편도와 아데노이드 절제

술 후 발생한 설편도 비대증을 전기 소작기와 수술적 박리를 이용한 절제술로 재발 없이 치료된 증례를 보고하였다.⁹⁾ 반면 Parham 등은 6차례의 이산화탄소 레이저 절제술에도 재발을 반복하는 설편도 비대증에 대해 보고하였으며 따라서 술후에도 설편도 비대증의 재발에 대한 추적관찰이 반드시 필요하다고 하였다.¹⁰⁾ 국내에서는 단극 전기소작기를 이용하여 설편도를 정중앙부터 근육층 위로 절제하고 양극 전기소작기로 지혈하는 방식으로 제거하였으며 무호흡 증상이 호전되었음을 보고하였다.¹¹⁾ 본 증례에서는 코블레이터를 이용하여 편도 조직을 제거하였으며 술 후 5개월까지 설편도의 재발 및 다른 발다이어 고리를 구성하는 림프 조직의 비대 소견은 없었다. 환자는 신체질량지수 37.2 kg/m²의 고도 비만으로 체중 감소는 폐쇄성 수면 무호흡증의 중요한 치료이며 체중이 늘어나면 수면 무호흡이 재발하거나 악화할 수 있기 때문에 환자에게 충분한 교육 및 운동, 체중 감량 노력을 권유하였다. 비만한 환자에서는 흉벽의 지방이 흉곽을 압박하여 폐의 용적을 감소시키고, 복부 지방이 횡격막을 위쪽으로 밀어 올려 상기도에 대한 기관지의 종단 견인력(longitudinal traction)을 감소시켜 상기도의 허탈력을 증가시킬 수 있다.¹⁶⁾¹⁷⁾ 또한 목둘레 길이의 측정값이 43~48 cm 사이일 경우에는 수면 무호흡증이 있을 가능성이 4~8배 가량 높아지고 48 cm 이상일 경우에는 20배 높아진다는 보고가 있는데 이는 인두 주위 공간에 침착된 지방이 직접적으로 상기도를 압박하여 기도를 폐쇄시키기 때문으로 여겨진다.¹⁸⁾ 그러나 환자의 순응도가 낮아 설편도 제거술 후 체중 감소 등 행동 요법에는 실패하였으며 술후 3개월째 내원 당시 환자의 체중 변화는 없었다. 이에 수면 무호흡 증상 호전 및 재발에 대하여 의문이 있었으나 3개월 후 시행한 수면다원검사 상 정상 상태가 유지되는 것이 확인되어 추가적 치료는 시행하지 않았다. 만약 설편도 제거 후에도 지속적 수면 무호흡이 확인되었다면 지속형 양압기 치료 및 구개수구개 인두성형술 등을 고려할 수 있다.

본 증례에서는 아데노이드와 편도 절제술을 시행한 고도의 폐쇄성 수면 무호흡 및 고도 비만 환자에서 발견된 설편도의 비대증으로 성문 상부의 폐쇄를 유발할 정도로 심하게 증식한 편도 조직이 확인되었다. 위험을 최소화하기 위해 전신 마취 전 국소 기관절개술로 기도를 확보한 후 코블레이터를 이용하여 설편도를 성공적으로 제거하였으며 술 후 5개월까지 재발 없는 상태가 유지되었다. 성인 수면 무호흡 환자의 치료 결정 전 설근부와 하인두를 포함한 전체적인 기도 평가가 필요하며 성인에서도 설편도의 비대가 수면 호흡장애의 원인이 될 수 있으므로 경우에 따라 설편도 절제

술이 수면 무호흡 치료에 도움이 될 수 있을 것으로 생각된다.

중심 단어 : 편도 · 비대 · 설 · 폐쇄성 수면 무호흡.

REFERENCES

- 1) Kim J, In K, Kim J, You S, Kang K, Shim J, et al. Prevalence of sleep-disordered breathing in middle-aged Korean men and women. *Am J Respir Crit Care Med* 2004;170(10):1108-13.
- 2) Friedman M, Ibrahim H, Bass L. Clinical staging for sleep-disordered breathing. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;127(1):13-21.
- 3) Peppard PE, Young T, Barnett JH, Palta M, Hagen EW, Hla KM. Increased prevalence of sleep-disordered breathing in adults. *Am J Epidemiol* 2013;177(9):1006-14.
- 4) Strohl KP, Brown DB, Collop N, George C, Grunstein R, Han F, et al. An official American Thoracic Society Clinical Practice Guideline: sleep apnea, sleepiness, and driving risk in noncommercial drivers. An update of a 1994 Statement. *Am J Respir Crit Care Med* 2013;187(11):1259-66.
- 5) Peppard PE, Young T, Palta M, Skatrud J. Prospective study of the association between sleep-disordered breathing and hypertension. *N Engl J Med* 2000;342(19):1378-84.
- 6) Breitmeier D, Wilke N, Schulz Y, Albrecht K, Wenzel V, Kleemann WJ, et al. The lingual tonsillar hyperplasia in relation to unanticipated difficult intubation: is there any relationship between lingual tonsillar hyperplasia and tonsillectomy? *Am J Forensic Med Pathol* 2005;26(2):131-5.
- 7) Robinson S, Ettema SL, Brusky L, Woodson BT. Lingual tonsillectomy using bipolar radiofrequency plasma excision. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;134(2):328-30.
- 8) Abdel-Aziz M, Ibrahim N, Ahmed A, El-Hamamsy M, Abdel-Khalik MI, El-Hoshy H. Lingual tonsils hypertrophy; a cause of obstructive sleep apnea in children after adenotonsillectomy: operative problems and management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2011;75(9):1127-31.
- 9) Acar GÖ, Cansz H, Duman C, Öz B, Cigercioğullar E. Excessive Reactive Lymphoid Hyperplasia in a Child With Persistent Obstructive Sleep Apnea Despite Previous Tonsillectomy and Adenoidectomy. *J Craniofac Surg* 2011;22(4):1413-5.
- 10) Parham K, Newman R. Recurrent lingual tonsil hyperplasia. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;129(9):1010-2.
- 11) Park CH, Shim HJ, Kim EJ, Ahn YM. A Case of Treatment in Obstructive Sleep Apnea Syndrome in Children with Lingual Tonsillar Hypertrophy. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2008;51(6):562-5.
- 12) Dündar A, Özünlü A, Sahan M, Ozgen F. Lingual tonsil hypertrophy producing obstructive sleep apnea. *Laryngoscope* 1996;106(9 Pt 1):1167-9.
- 13) Han BD, Shin SM, Kim YR, Ye MK, Shin SH. Effect of Gastroesophageal Reflux on the Symptoms and Treatment Result of Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *J Rhinol* 2012;19(1):40-4.
- 14) Marcos Ordóñez M, Benito Orejas JI, Blasco Gutiérrez MJ, Morais Pérez D, Ramírez Cano B. Oropharyngeal tuberculosis. Report of case in a lingual tonsil. *Acta Otorrinolaringol Esp* 1999;50(7):575-8.
- 15) Fricke BL, Donnelly LF, Shott SR, Kalra M, Poe SA, Chini BA, et al. Comparison of lingual tonsil size as depicted on MR imaging between children with obstructive sleep apnoea despite previous tonsillectomy and adenoidectomy and normal controls. *Pediatr Radiol* 2006;36(6):518-23.
- 16) Chung YS. Pathogenesis of Obstructive Sleep Apnea. *J Rhinol* 2009;16(2):87-90.
- 17) Smith PL, Gold AR, Meyers DA, Haponik EF, Bleecker ER. Weight loss in mildly to moderately obese patients with obstructive sleep apnea. *Ann Intern Med* 1985;103(6):850-5.
- 18) Rowley JA, Permutt S, Willey S, Smith PL, Schwartz AR. Effect of tracheal and tongue displacement on upper airway airflow dynamics. *J Appl Physiol* 1996;80(6):2171-8.