

□ 증 례 □

성대 운동이상에 의한 기능성 상기도 폐색 1예

고려대학교 의과대학 내과학교실

서정경, 이상엽, 이상화, 박상면, 조재연,
심재정, 인광호, 강경호, 유세화

= Abstract =

A Case of Functional Upper Airway Obstruction Due To Vocal Cord Dysfunction

Jung Kyung Suh, M.D., Sang Yeub Lee, M.D., Sang Hwa Lee, M.D.,
Sang Myun Park, M.D., Jae Youn Cho, M.D., Jae Jeong Shim, M.D.,
Kwang Ho In, M.D., Kyung Ho Kang, M.D and Se Hwa Yoo, M.D.

Department of Internal Medicine, College of Medicine, Korea University, Seoul, Korea

Functional upper airway obstruction due to vocal cord dysfunction is being increasingly recognized and has been variously described as "Munchausen's stridor", "Emotional laryngeal wheezing", "Nervous asthma". It's features are symptoms of acute reversible recurrent dyspnea associated with an inspiratory stridor, normal anatomy of the upper airway, demonstration of variable severe extrathoracic upper airways obstruction with pathologic adduction of the vocal cord at bronchoscopy. The patients with this condition are frequently misdiagnosed as asthma and the diagnosis is often delayed. So they can present a serious medical problem and are exposed to the complication of treatment and investigation. We report a case of functional upper airway obstruction due to vocal cord dysfunction who showed paradoxical vocal cord motion at bronchoscopy and typical features of variable extrathoracic obstruction on Flow-volume loop during a symptomatic period.

Key Words : Functional upper airway obstruction, Vocal cord dysfunction

서 론

성대 운동이상(vocal cord dysfunction)은 여러 가지 다양한 명칭으로 표현되는 질환으로^{1,2,3)} 상기도의 해부학적 구조는 정상이면서 흡기시 성대가 내전(adduction) 되고 호기시 부분적 외전(abduction)하는 역행성 운동을 보여, 재발하는 비교적 짧은 시간의 상기도 폐색증상과 성대운동장애를 일으킨다. 이런 특성으로 인하여 천식으로 오인되기도 하여^{2,4,5)} 진단이 늦어지고 여러 불필요한 치료와 검사로 인한 합병증이 동반되기 쉽다⁶⁾

주 임상증상은 흡기성 천음(stridor)을 동반하는 재발하는 급성 가역성 호흡곤란이고 주로 젊은 여성에 호발한다는 보고가 있었으나 최근에는 성별과 나이에 관계없이 발생하는 것으로 알려져있다. 발병원인과 발생기전은 확실히 규명되어있지 않으나 정신장애, 심리적인 요인^{2,7,8)} 및 성대의 운동을 관장하는 신경계통의 이상등과 관련이 있다고 알려져있고 천식과 동반되어 일어나는 경우가 종종 있는데 이 경우 치명적인 결과를 초래할수있다⁴⁾. 저자등은 놀발적으로 발생하여 심한 호흡곤란, 천명(wheezing) 및 천음(stridor), 발성장애(dysphonia)를 보였고 기관지내시경상 관찰된 역행성 성대운동과 폐기능검사상 유량기량곡선에서 가변의 흉곽외 상기도폐쇄소견으로 확진된 성대운동이상에 의한 기능성 상기도 폐색증 1예를 보고하는 바이다.

증 례

환자 : 여자 45세

주소 : 호흡곤란

현병력 : 환자는 비흡연자로 2년전부터 잦은 상기도 감염과 기침, 호흡곤란으로 본원 외래에 내원하여 고해상 흉부 전산화 단층촬영에서 세기관지염으로 진단받고 통원치료중

이었다. 약 6개월전부터 두달에 한번정도로 목이 쉬었었고 한달전부터 후두염으로 개인 이비인후과에서 치료를 받고있던중 입원 7일 전 감기를 앓으며 목이 쉬고 3일전부터 갑자기 거의 질식할 정도의 호흡곤란발작이 수차례 발생하여 본원 응급실로 내원하였다. 과거력 및 가족력상 특이사항이 없었고 미혼으로 직업은 유치원 보모였다.

이학적 소견 : 입원당시 활력징후는 혈압 170 /120 mmHg, 맥박수 100회/분, 호흡수 26회/분, 체온 36.9도이었고 급성 병색으로 호흡곤란이 심해보였고 두경부소견상 특이소견 없었으며 흉부청진상 전폐야에서 호흡음이 전반적으로 감소해있었다 양측폐야에서 흡기 및 호기시 중등도의 천명이 들렸고 전흉부에서 흡기시 천음(stridor)이 들렸다. 심음은 정상이었었고 복부검사와 사지검사상 특이한 소견은 없었다.

검사 소견 : 입원당시 시행한 동맥혈 가스 분석 검사상 pH 7.422, PCO₂ 27.9mmHg, PO₂ 63.4mm Hg, HCO₃ 18.3mmol/L 이었고 말초혈액검사상 백혈구 9900/mm³, Hgb 14.1g/dl, Hct 45.5%, 혈소판 301000/mm³이었으며 뇨 검사 및 생화학적 검사는 정상이었다. 심전도상 특이소견 없었고 단순 흉부방사선 소견상 좌폐하엽에 기관지 변연비후(peribronchial thickening)소견이 관찰되었다.

임상 경과 : 환자는 입원 수신후 갑자기 심한 호흡장애 및 청색증을 일으키고 목소리가 나오지 않았으며 청진시 호흡음이 거의 들리지않았고 흡기와 호기시 천음(stridor)이 청진기 없이도 들렸다. 이 당시 최대호기속도(peak expiratory flow rate, PEF)는 측정할 수 없었고 동맥혈 가스분석검사상 저산소혈증을 보였다.(pH 7.52, PCO₂ 25mmHg, PO₂ 58.6mmHg, HCO₃ 20.8mmol/L)

베타-교감신경자극제를 분무기로 투여하였으나 반응이 없었고 산소흡입 및 안정 후 수시간에 걸쳐 서서히 호흡은 안정이 되었다. 애성은 계속되었고 기침을 반복하면 비슷한 호흡곤란발작이 그후에도 여러차례 발생하였다.

안정시 PEF는 350-380l/min로 유지되었고 폐기능 검사는 정상이었으나 호흡곤란이 있을 때는 PEF를 측정할수 없었고 동맥혈 가스분석검사상 저산소혈증을 보였으며 폐기능 검사상 다양한 상기도 폐색소견을 보였다 (Fig.1,2,3).

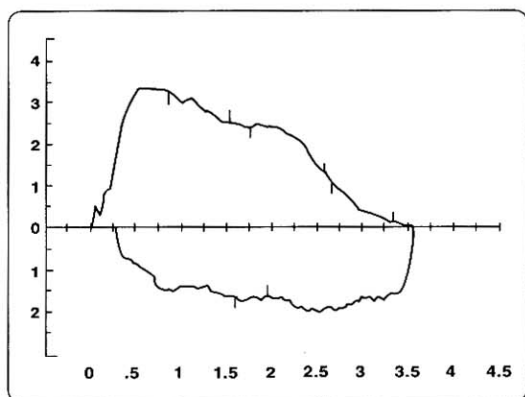


Fig. 1. During episode of wheezing, the maximal expiratory and inspiratory flow-volume loop was consisted with a variable extra-thoracic obstruction.

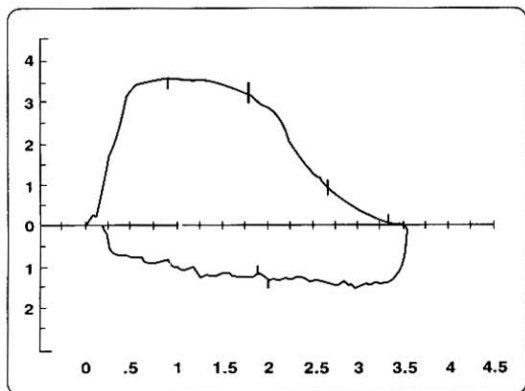


Fig. 2. During episode of dyspnea, the flow-volume loop showed a variable extra-thoracic obstruction.

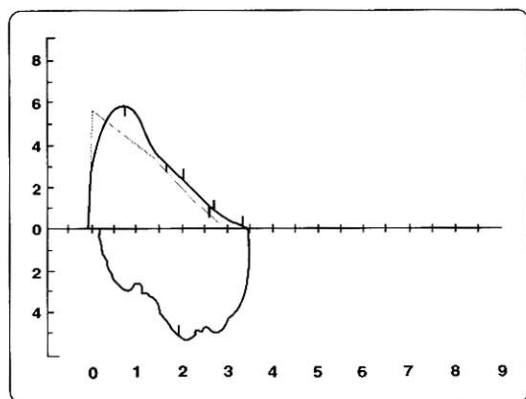


Fig. 3. In absence of dyspnea or wheezing, the flow-volume loop did not show a variable extrathoracic obstruction.

프레드니솔론을 7일동안 30mg/일 투여하였음에도 불구하고 기도폐색은 간헐적으로 발생하였고 베타 교감신경자극제는 효과가 없었으며 증상은 매번 서서히 회복되었다. 자연 발작이 소실된후 시행한 기관지 내시경 검사에서 성대에는 가벼운 부종과 발적이 있었고 성대마비는 없었으며 기관지내부에는 별다른 이상이 없었다. 그러나 성대가 흡기시 내전하고 호기시 외전하는 역행성 운동을 보였고 기관지경 끝이 기관내에 있을 때 환자는 호흡이 용이하다고 하였다.(Fig.4)



Fig. 4. At bronchoscopy, vocal cords showed inspiratory adduction with partial abduction during expiration.

성대운동이상에 의한 기능성 상기도 폐색으로 진단하였고 퇴원후에도 간혹 호흡 곤란 발작을 보였으나 증세는 경미하였고 진해제 및 소량의 안정제등으로 호전되어 현재 외래에서 추적관찰중이다.

고 안

성대운동이상에 의한 기능성 상기도 폐색은 1974년 Patterson등이 "Munchausens stridor"¹⁾로 처음 보고한 이래 "Emotional laryngeal wheezing" "Episodic laryngeal dyskinesia" "Brief upper airway dysfunction (BUAD)"²⁾등의 여러 이름으로 표현되고 있다.

이 질환은 호흡주기동안 성대의 역행성 운동에 의해 기능적 상부기도 폐색이 발생되고 그로 인해 재발하는 돌발적인 천명음과 호흡 곤란등 '천식발작과 유사한 임상증상을 보이거나 일반적인 천식의 치료에 반응이 없는 것이 특징이다.

발생빈도는 확실히 알려진 바는 없으나 1974년부터 1987년까지 약 31예가 보고되었고 그후 1994년 Campell등이 15예를 보고하여³⁾ 빈도가 그리 높지 않으나 이 질환에 대한 인식부족및 진단시 천식등 다른 질환으로 오진하는 경우가 많아 실제빈도는 더 높을것으로 추측되며, 성별과 연령에 관계없이 발생한다는 보고도 있으나 주로 젊은 여성에 호발하는 경향이다^{4,7)}. 발병 원인 및 기전에 대해서는 여러 가설이 있는데 과거 정신질환을 앓은 병력과 연관이 있을 것으로 생각되어 여러 논문에서 이 질환이 의심되는 환자를 대상으로 정신과적 진찰과 검사를 시행해본 결과 심각한 수준의 정신병이나 전환장애(conversion disorder), 히스테리성 인격등은 없었으나 우울증(depression)과 신체화장애(somatization disorder)는 비교적 흔한 것으로 나타났고 대다수에서 분노, 슬픔, 공포등의 감정표현에 어려움이 있었으며 호흡기 증상으로 다양한 정도의 이차적 이득

(secondary gain)이 있는 것으로 나타났다^{3,5)}. 그러나 대부분의 환자는 자신이 상기도 폐색증이 있다는 것을 모르고 단순한 천식발작이라고 믿고 있었으며 의식적으로 후두운동장애를 일으킬수 없어 의식적인 피병이나 천식(factitious asthma)은 아닌것으로 생각되며 아직 두 질환의 연관성에 대해서는 확실히 밝혀진 바 없다⁷⁾.

또한 성대운동을 관장하는 신경계의 이상으로 발생한다는 가설이 있는데 성대는 신경의 지배가 풍부한 곳으로 후두와 호흡기 수용기(larynx and respiratory tract receptor)에 자극이 가해지면 미주신경을 통해 후두성문반사가 발생하고 수의적,불수의적 반사조절에 의한 평활근 활성정도에 따라 성문의 크기가 결정된다⁸⁾. 성문은 흡기시 넓어지고 호기시 좁아져 그 간격에 의해 유속및 흡기와 호기시간, 호기시 폐용적이 조절되어 원활한 정상호흡이 가능하도록 하는데 만성 폐색성 폐질환 환자에서는 성문간격을 정상보다 좁게 유지함으로 호기시간을 길게하여 보상작용을 하고 정상인에서도 기류가 급격히 제한되는 경우 유사한 기전으로 성문간격이 좁아진다는 보고가 있다⁹⁾. 기능성 상기도 폐색증은 이런 성문운동을 관장하는 신경계의 이상, 특히 성문반사를 조절하는 중추신경 이상시 발생한다는 가설이 있으나 아직 정확한 기전에 대해서는 밝혀진 바없다. 발작을 일으키는 선행요인으로 상기도 감염과 긴장, 분노, 놀람 등의 감정의 변화등이 기여하는 것으로 추측되나 확실한 선행요인은 알려지지 않았다.

임상증상은 천식과 유사해 처음 증상발현에서 진단받기까지 평균 2.5-12.5년이 걸리고 증상의 발작빈도는 불규칙하며 낮보다 밤에 발생하는 빈도가 더 높다. 발작시 잠에서 깨어 기침을 심하게 하고 호흡곤란, 천명, 무호흡등의 전형적인 상기도 폐색증상 나타나므로, 코를 심하게 끌고 환자가 잠에서 깨면 무호흡이 소실되는 폐색성 수면 무호흡증과 감

별이 가능하다. 발작전 보통 전정부 압박감과 인후두 불편감이 선행되고 이어 기침이 일어나며 발작이 생기는데 대부분 상기도 감염, 알레르기성 자극, 위식도역류 등이 인후두 불편감을 일으키는 원인이다. 총 발작시간은 짧게는 수분에서 길게는 수시간내지 수일간 오래 지속되는 등 개인차가 심하나 전형적인 경우 평균 2-5분정도이며 두단계로 나눌수 있는데 첫단계는 폐색성 무호흡이 수초에서 2분까지 지속되며 이시기에는 말이 안나오고 기침도 할수 없으며 인두근육수축이 동반시 삼키는 기능에도 장애가 온다. 이어 약 1-4분간 흡기성 천음을 동반한 호흡장애가 발생하고 심한경우 실신할수 있다.

이학적 검사상 급성기도폐색시 보일수 있는 모든 소견이 보일수 있는데 천명음은 후두근처에서 가장 크게 들리나 전폐야로 전파되어 천식과 유사하게 들리고 흡기성 천음, 늑간 퇴축(intercostal retraction), 기관견인(tracheal tug), 청색증, pulsus paradoxicus등이 관찰될 수 있다.

흉부 X선상 과팽창소견을 보이는 경우도 있으나 대부분 정상이고 동맥혈가스분석검사상 발작이 심한경우 저산소혈증이, 매우 발작이 심한경우 드물게 고이산화탄소혈증도 발생한다.

확진은 후두경 또는 기관지내시경으로 가능하고 흡기시 성대가 내전하고 호기시 부분적으로 외전하거나 외전이 일어나지 않는 역행성 운동이 전형적인 소견이다.

폐기능검사도 확진에 도움이 되는데 무증상시는 정상소견을 보이나 발작시는 유량기량 곡선상 흡기시에만 곡선에 고평부가 나타나는 가변의 흉곽외 상기도폐쇄소견을 보이고 경우에 따라 호기와 흡기시 모두 곡선이 편평화되는 고평부를 보이는 고정된 상기도폐색소견도 나타날 수 있다. 그외에도 최대흡기유속의 현저한 감소, 호기시간대 흡기시간의 비가 2이상으로 증가, 유량기량 곡선상 흡기곡선에 fluttering등이 관찰될수 있다.

이 질환의 정확한 진단을 위해서는 천식과 감별진단이 필수적이며 천식에 반해 기도 과민성이 없어 천식 유발검사상 유발이 되지 않으며 인두근육의 강직으로 목소리가 안 나오는 경우를 제외하고는 숨이 차서 말을 못하는 경우는 없고 기침이나 숨참이후 오히려 천명이 감소되는 경우가 있는등 천식과 여러가지 다른점이 있어 주의를 기울여 관찰시 감별이 가능하다¹⁰⁾.

발작시 급성 기도폐색증상을 일으키므로 기관지 삽관술, 기관절개술등 침습적인 치료가 과잉으로 시행되어졌으나 사실상 불필요한 경우가 대부분이고 보조적인 치료로 충분히 가능하다는 견해가 지배적이다.

치료로는 산소요법이 기본적이고 환자에게 병의 경과를 설명, 안심(reassurance)시키고 이완요법(relaxation technique), 성대조절방법(cord control technique)등을 교육시키는 언어요법(speech therapy)이 효과적이며⁵⁾ 비침습적인 보조환기요법인 IPPV (intermittent positive pressure ventilation), CPAP(continuous positive airway pressure)을 사용시 천음이 감소된다¹¹⁾.

그외에도 전신마취시 성대의 역행성 운동이 소실되었다는 보고가 있고¹²⁾ diazepam 정맥주사 또는 위약(placebo)근주후 환자를 안심시킨 경우, 혼합가스흡입(80% Helium+20% O₂-xygen)시킨경우⁵⁾에서 효과가 있었고 또한 정신과 카운셀링도 도움이 될수있다¹³⁾.

한편 스테로이드 요법이나 기관지확장제, 항생제등은 증상완화나 질병경과에 거의 영향이 없는것으로 판명되었다.

그러므로 이질환에 대한 깊은 관심과 이해로 진단을 적절히 하여 부적절하고 유해한 기관지절개술, 기도삽관후 기계호흡, 다량의 스테로이드요법등을 피할수있고 발작시 환자를 안심시키고 산소공급및 안정제투여만으로도 발작을 효과적으로 멈출수 있으며 환자에게 병 경과에 대한 충분한 설명을 하여 질병에 대한 이해를 높임으로 발작빈도 및 정도

를 낮추리라 사료된다.

예후는 비교적 좋은 것으로 알려져 있으나 노인이나 만성폐색성폐질환, 천식등이 동반된 경우는 사망하는 경우도 있다¹⁴⁾.

본환자는 흡기성 천음을 동반하는 급성 가역성 호흡곤란과 전형적인 상기도 폐색증상을 보여 스테로이드와 항생제, 기관지 확장제를 사용하여 치료하였으나 계속적으로 증상이 반복되던중 기관지내시경검사와 폐기능검사로 성대 운동이상에 의한 기능성 상기도폐색증을 확진한 예로 진단후 질병기전에 대한 충분한 설명을 하여 환자를 안심시키고 소량의 안정제를 투여하여 증상이 호전되었다. 정신과적 검사는 시행하지 못하였으나 진찰상 성격장애 또는 특이한 이상소견은 발견할수 없었고 그외의 발병원인도 뚜렷하지 않았다. 상기도 염증이 선행후 발병되는 경향이 있었고 그 밖의 선행 요인은 확실치 않았으며 퇴원후에도 경미하지만 수차례의 발작이 있어 외래에서 소량의 안정제와 진해제로 치료하였고 경과는 비교적 양호하였다.

요 약

저자들은 호흡곤란을 주소로 내원한 성대 운동이상에 의한 기능성 상기도 폐색증 1예를 기관지내시경 및 폐기능검사로 확진하고 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

참 고 문 헌

- 1) Patterson R, Schatz M, Horton M: Munchausen's stridor, Non-organic laryngeal obstruction. Clin Allergy 4: 307, 1974.
- 2) Rodenstein DO, Francis C, Stanescu DC: Emoti-

- onal laryngeal wheezing: a new syndrome. Am Rev Respir Dis 127: 354, 1983.
- 3) Campbell AH, Pierce R: Brief upper airway dysfunction. Resp Med 88: 125, 1994.
- 4) Ramirez-RJ, Leon I, Rivera LM: Episodic laryngeal dyskinesia. Chest 90: 716, 1986.
- 5) Kent KL, Wood RP, Eckert RC, Blagger FB, Raneey JF, Souhrada JF: Vocal cord dysfunction presenting as asthma. New Engl J Med 26: 1566, 1983.
- 6) Niven RM, Roberts T, Pickering CA, Webb AK : Functional upper airways obstruction presenting as asthma. Resp Med 86: 513, 1992.
- 7) Downing ET, Braman SS, Fox MJ, Corrao WM : Factitious asthma. J Am Med Assoc 248: 1878, 1982.
- 8) Lisbora C, Jardim J, Angus E, Macklem PT: Is extrathoracic airway obstruction important in asthma? Am Rev Respir Dis 122: 115, 1980.
- 9) Brancatisano TP, Dodd DS, Collett PW, Engel LA: Effect of expiratory loading on glottic dimensions in human. J Appl Physiol 58: 605, 1985.
- 10) McFadden E.R. Jr: Glottic function and dysfunction. J Allergy Clin. Immunol 79: 707, 1987.
- 11) Collet PW, Brancatisano TB, Engel LA: Spasmodic croup in the adult. Am Rev Respir Dis 127: 500, 1983.
- 12) Kellman RM, Leopold DA: Paradoxical vocal cord motion: an important cause of stridor. Laryngoscope 92: 58, 1982.
- 13) Comier YF, Camus P, Desmeules MJ: Nonorganic acute upper airway obstruction: description and a diagnostic approach. Am Rev Respir Dis 121: 147, 1980.
- 14) Berns B, Webb AK, Hanley SP, Taylor P: Lethal laryngeal obstruction. Resp Med 88: 543, 1994.