

IMAGE OF THE MONTH

윤상인두근 기능부전에 의한 인두 연하곤란 환자에서 풍선확장술과 보툴리눔 독소 주사 치료

오태훈

인제대학교 의과대학 상계백병원 내과학교실

Treatments with Balloon Catheter Dilatation and Botulium Toxin Injection in a Patient with Pharyngeal Dysphagia Secondary to Cricopharyngeal Dysfunction

Tae Hoon Oh

Department of Internal Medicine, Sanggye Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Seoul, Korea

증례: 43세 남자가 3주전 발생한 연하곤란이 지속되어 협진 의뢰되었다. 과거력에서 특이 소견이 없던 환자는 3주 전 갑자기 좌측 반신불완전마비가 발생하여 응급실을 방문하였고 급성 외측수질경색증(lateral medullary infarction)으로 진단받고 치료 후 안정되어 재활의학과에서 재활 치료 중이었다. 입원할 때부터 모든 종류의 식이에 연하곤란 및 흡인이 있어 경관영양 공급하면서 시행한 비디오투시연하검사(video-fluoroscopic swallowing study)에서 구강기는 양호하였고, 인두기에서 후두 거상(laryngeal elevation)은 비교적 유지되었으나 상부식도괄약근의 불완전 이완으로 바륨이 후두개곡(valleculae)과 조롱박오목(pyriform sinus)에 저류되는 소견을 보여 이에 대한 치료를 위해 소화기내과로 협진 의뢰되었다(Fig. 1). 동반 증상으로 실조증, 구음장애(dysarthria), 쓴소리가 있었다. 신경학적 신체검사 소견에서 의식은 명료하였고 인지 기능은 정상이었으며 좌측 안면신경 마비소견과 좌측 실조성반부전마비(ataxic hemiparesis)가 관찰되었다. 생체징후 및 혈액검사 소견에서 특이 소견은 없었다. 고해상도식도내압검사 소견에서 인두 근육의 수축압 감소 및 동시성 수축, 인두근 수축과 상부식도괄약근 이완의 협동장애(incoordination), 연하 시 상부식도괄약근의 잔여 압력(residual pressure)이 높은 소견을 보였다(Fig. 2A). 상부식도괄약근 이완

부전에 대해 내시경 풍선확장술을 시행하였다(Fig. 3A). 그러나 시술 3주 후에도 증상이 지속되고 추적 시행한 고해상도식도내압검사도 호전된 소견을 보이지 않아 내시경하 보툴리눔 독소 주사 치료를 시행하였다(Fig. 3B). 시술 2일 뒤부터 연하곤



Fig. 1. Video-fluoroscopic swallowing study shows retained barium residue on vallecular and pyriform sinus.

© 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.

교신저자: 오태훈, 139-707, 서울시 노원구 동일로 1342, 인제대학교 상계백병원 내과

Correspondence to: Tae Hoon Oh, Department of Internal Medicine, Inje University Sanggye Paik Hospital, 1342 Dongil-ro, Nowon-gu, Seoul 139-707, Korea.

Tel: +82-2-950-8867, Fax: +82-2-950-1955, E-mail: osbbang@paik.ac.kr

Financial support: None. Conflict of interest: None.

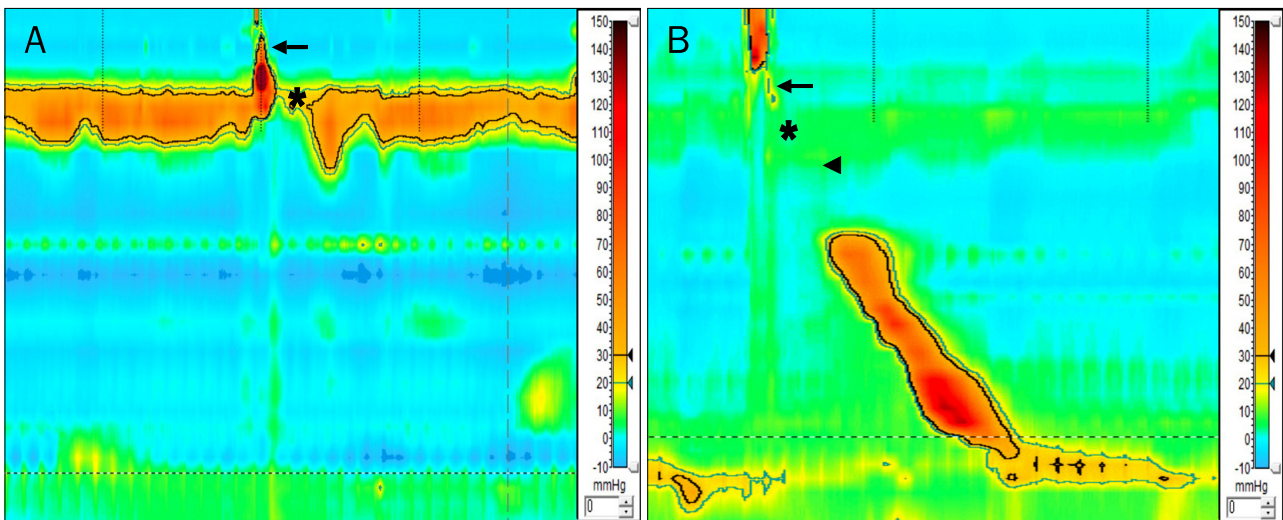


Fig. 2. Sequential change of manometric findings in high resolution esophageal manometry. (A) Initial findings show decreased contractile pressure of pharyngeal muscle with aperistalsis (black arrow), lack of pharyngoesophageal coordination, and incomplete relaxation of upper esophageal sphincter (asterisk), resulting in hindrance of bolus transit. (B) Follow-up study after Botulinum toxin injection shows decreased resting and residual pressure of upper esophageal sphincter during deglutition (asterisk), resulting in complete bolus transit. However, contractile pressures of hypopharynx (black arrow) and proximal segment of esophageal body (arrowhead) near upper esophageal sphincter are also decreased compared to the initial study.

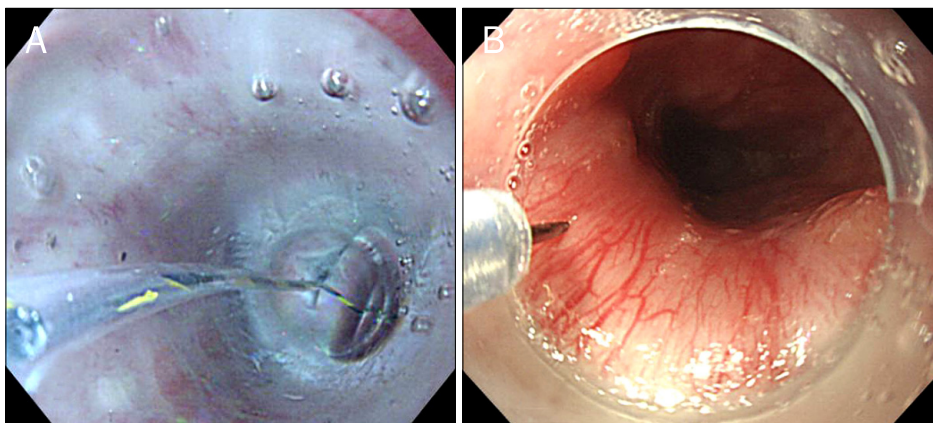


Fig. 3. Endoscopic treatment of secondary cricopharyngeal dysfunction. (A) Under deep sedation, upper esophageal sphincter was dilated with a 20-mm controlled radial expansion balloon catheter for 2 minutes. (B) Diluted solution, equivalent to 100 U Botulinum toxin A, was injected with an endoscopic sclerosis needle at the upper esophageal sphincter level.

란이 호전되기 시작하였고 2주 뒤에는 모든 종류의 식이에 흡인없이 경구 섭취가 가능하였으며, 추적 시행한 고해상도식도내압검사 소견에서 기저 압력과 이완기 잔여 압력이 각각 47.2 mmHg, 9.9 mmHg에서 21.8 mmHg, 2.3 mmHg로 감소되었다(Fig. 2B). 이후 환자는 3개월째 연하곤란 증상의 재발이 없었다.

진단: 뇌경색 후 발생한 윤상인두근 기능부전에 의한 연하곤란

상부식도괄약근은 내압검사에서 하인두와 상부식도 사이에 존재하는 생리학적 고압대로, 해부학적으로는 하부인두수축근, 윤상인두근, 경부 식도 일부분으로 구성되어 있다. 이중 윤상인두근은 섬유탄력 결합조직이 풍부한 수의근으로 수

축과 반사적 이완을 통하여 괄약근으로서 주요한 역할을 한다. 상부식도괄약근은 안정 시에는 긴장도를 유지하여 닫힌 채로 있으므로 흡기 시 공기의 식도 내 유입을 차단하고 음식물의 역류를 막는 작용을 하나, 연하 시에는 인두근육의 수축과 동시에 반사적으로 이완되어 음식 종괴가 식도 내로 하강하게 된다.¹ 따라서 윤상인두근의 기능부전은 입인두 연하곤란의 중요한 기전으로 작용할 수 있으며 동시에 치료의 중요한 대상이 된다. 그러나 음식 종괴가 구강에서 식도로 내려가기 위해서는 상부식도괄약근의 충분한 이완 뿐 아니라 후두거상을 통한 상부식도괄약근의 개구, 인두근육의 적절한 수축 및 연동운동을 통한 종괴의 이동(propulsion of bolus), 인두근육과 상부식도괄약근의 협동(coordination)이 반사적으로 잘 이루어져야 한다.² 이러한 연하 과정의 유기적인 운동을

평가할 수 있는 기능 검사로 비디오투시연하검사, 식도내압검사가 있다. 윤상인두근 기능 부전은 원인을 알 수 없는 경우도 있지만, 연하 과정의 여러 근육 운동에 영향을 줄 수 있는 신경근육 질환에 의해 이차적으로 발생할 수 있다. 이번 증례는 뇌간 뇌경색 후 입인두 연하곤란이 발생한 경우였다. 뇌간 뇌경색 환자의 70%에서 급성기에 연하곤란이 발생할 수 있는데, 대뇌피질을 침범한 경우와 달리 대부분은 급성기를 지나면서 호전되고 비디오투시연하검사에서 구강기는 비교적 유지되면서 주로 인두기가 손상된 특징을 보인다.³

윤상인두근의 기능 부전에 대한 직접 치료로 풍선이나 부지를 이용한 확장술, 보툴리눔 독소 주사, 외과적 또는 내시경 근절개술이 있다. 적절한 대상 환자의 선택과 치료 방법 결정에 대해 합의된 가이드라인은 없으며 제한된 수의 후향적 관찰 연구들에 근거한 전문가 권고안이 보고되었다.⁴ 같은 치료 방법이라도 다양한 효과들을 보고하였는데, 이는 윤상인두근 기능부전의 교정만으로 연하곤란이 일률적으로 호전되지 않음을 시사한다. 시술 후 높은 치료 반응을 예측할 수 있는 인자는 구강기 연하운동, 인두근육 수축력, 후두 거상이 비교적 유지되는 경우였다.⁵

윤상인두근 확장술은 전신 마취 없이 진정 상태에서 부지 또는 내시경하 풍선확장술로 시행할 수 있고 주요 합병증 발생의 가능성이 거의 없는 안전한 시술로 알려져 있다. 46명으로 가장 많은 증례수를 포함한 최근의 후향적 연구에서 부지 확장술 시행 후 64%에서 효과가 있었고 효과 지속 기간의 중간값은 2년이었으며, 14.5%에서 추가적인 재시술이 필요하였다. 그러나 59번의 시술 중에서 주요 합병증 발생은 없었다.⁶

1994년 Schneider 등이 윤상인두근 기능 부전으로 인한 연하곤란 환자에서 A형 보툴리눔 독소 치료의 효과를 처음 보고한 이후 다양한 원인에 의한 구강인두 연하곤란의 치료로 이용되어 왔다. 19개의 기존 보고들을 고찰한 연구에서 치료의 효과는 75%로 보고되었고 최근 가장 많은 수를 포함한 49명의 단일 연구에서도 65%로 중등도 이상의 효과가 보고되었다.⁷ 그러나 드물게 수년 동안 증상 관해에 도달한 예들이 보고되었으나 대부분은 효과 지속 기간이 5-6개월로, 이후 유지를 위해 반복적인 주사가 필요하였다. 이번 증례에서도 향후 연하곤란이 재발할 가능성이 높아 반복 치료가 필요할 것으로 예상되므로 정기적인 추적 관리가 필요하다. 한편 보툴리눔 독소 주사 치료는 시술 방법이 표준화되어 있지 않아 환자 전처치, 주입된 독소의 양이나 경로, 위치 선정 방법에 있어 다양한 방법들이 보고되었다. 발생 가능한 합병증으로 독소의 주변 확산으로 인해 후두에 영향을 주어 호흡 부전이 발생할 수 있으며, 인두근육의 마비를 초래하여 연하곤란이 오히려 악화될 수 있고 상부식도괄약근의 기저압력이 감소함

으로써 역류 및 흡인이 발생할 수 있다. 이번 증례에서도 독소 주입 치료 후 임상적으로는 연하 곤란이 호전되었으나 독소의 확산으로 인해 내압검사 소견에서 상부식도괄약근과 인접한 하인두부와 상부 식도의 수축력 감소 소견을 보였다.

근절개술은 윤상인두근 기능 부전의 표준 치료로 60% 정도에서 효과가 있고 다른 치료에 비해 효과가 장기간 지속된다.⁸ 확장술이나 보툴리눔 독소 주입 치료에 반응이 없는 경우라도 전신 상태가 양호하고 적절한 적응증을 가진 경우에는 고려할 수 있다. 그러나 다른 치료 방법에 비해 전신마취하 수술에 따른 합병증 발생의 위험도가 상대적으로 높는데, 253명의 후향적 연구에서 40명(16%)에서 감염, 혈종, 누공, 흡인성 폐렴 등이 발생하였다. 내시경 레이저 근절개술의 도입으로 이러한 합병증을 줄일 수 있음이 보고되었다.⁹

표준화된 가이드라인은 없지만 치료 방법의 결정에 있어 환자의 전신상태, 치료 효과의 유지 기간, 합병증 발생 가능성을 고려한 접근이 필요하며, 이와 더불어 환자의 선택 및 의료진의 숙련도가 함께 고려되어야 한다. 이번 증례에서 보툴리눔 독소 주입 치료는 근절개술에 비해 전신마취가 필요 없고 상대적으로 시술이 간단하며 합병증 발생 가능성이 작고 이후에 시행될 근절개술의 효과를 미리 예측하는 데 도움을 줄 수 있다는 보고가 있어 풍선확장술에 이어 보툴리눔 독소 주입 치료를 우선적으로 시행하였다.¹⁰ 시술 후 연하곤란이 완전히 호전되었으므로 향후 증상 재발로 반복적인 주사 치료가 필요하다면 근절개술이 보다 영구적인 치료가 될 수 있을 것이다.

결론으로 입인두 연하곤란은 다양한 원인으로 발생할 수 있으며 기저 질환의 병태 생리에 대한 이해와 기능검사 소견을 통해 상부식도괄약근 기능부전을 진단할 수 있다. 비디오투시연하검사 및 내압검사는 이러한 연하 과정을 종합적으로 평가하고 치료 후 효과를 예측함으로써 치료 대상군을 선택하는 데 도움을 줄 수 있다. 치료 방법의 선택은 기저질환, 합병증 발생 가능성, 효과의 지속성, 비용 대 효과 측면을 고려한 접근이 필요하며, 내시경 풍선확장술 또는 보툴리눔 독소 주사 치료법은 전신마취하 수술적 근절개술을 시행하기 전에 우선적으로 고려해 볼 수 있다.

REFERENCES

1. Sivarao DV, Goyal RK. Functional anatomy and physiology of the upper esophageal sphincter. *Am J Med* 2000;108(Suppl 4a):27S-37S.
2. Cook LJ, Dodds WJ, Dantas RO, et al. Opening mechanisms of the human upper esophageal sphincter. *Am J Physiol* 1989;257:G748-G759.
3. Han DS, Chang YC, Lu CH, Wang TG. Comparison of disordered

swallowing patterns in patients with recurrent cortical/sub-cortical stroke and first-time brainstem stroke. *J Rehabil Med* 2005;37:189-191.

4. Kuhn MA, Belafsky PC. Management of cricopharyngeus muscle dysfunction. *Otolaryngol Clin North Am* 2013;46:1087-1099.
5. Buchholz DW. Cricopharyngeal myotomy may be effective treatment for selected patients with neurogenic oropharyngeal dysphagia. *Dysphagia* 1995;10:255-258.
6. Clary MS, Daniero JJ, Keith SW, Boon MS, Spiegel JR. Efficacy of large-diameter dilatation in cricopharyngeal dysfunction. *Laryngoscope* 2011;121:2521-2525.
7. Kelly EA, Koszewski IJ, Jaradeh SS, Merati AL, Blumin JH, Bock JM. Botulinum toxin injection for the treatment of upper esophageal sphincter dysfunction. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2013;122:100-108.
8. Cook IJ, Kahrilas PJ. AGA technical review on management of oropharyngeal dysphagia. *Gastroenterology* 1999;116:455-478.
9. Dauer E, Salassa J, Iuga L, Kasperbauer J. Endoscopic laser vs open approach for cricopharyngeal myotomy. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;134:830-835.
10. Blitzer A, Brin MF. Use of botulinum toxin for diagnosis and management of cricopharyngeal achalasia. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1997;116:328-330.