

持續的 上氣道 陽壓術을 施行하여 治療效課를 본  
注意力 缺乏 · 過剩 運動障礙를 同伴한 小兒期 閉鎖性  
睡眠無呼吸症 1例\*

孫昌鎬\*\* · 申敏燮\*\*\* · 洪剛義\*\*\* · 鄭道彦\*\*†

A Case of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome with Co-morbid  
Attention Deficit Hyperactivity Disorder Treated with Continuous Positive  
Airway Pressure Treatment\*

Chang-Ho Sohn, M.D.,\*\* Min-Sup Shin, Ph.D.,\*\*\*  
Kang-E Hong, M.D., Ph.D.,\*\*\* Do-Un Jeong, M.D., Ph.D.\*\*†

— ABSTRACT —

Obstructive sleep apnea syndrome(OSAS) in childhood is unique and different from that in adulthood in several aspects, including pathophysiology, clinical features, diagnostic criteria, complications, management, and prognosis. Characteristic features of childhood OSAS in comparison with the adult form are the variety of severe complications such as developmental delay, more prominent behavioral and cognitive impairments, vivid cardiovascular symptoms, and increased death risk, warranting a special attention to the possible diagnosis of OSAS in children who snore. However, the childhood OSAS is often neglected and unrecognized.

We, therefore, report a case of very severe OSAS in a 5-year-old boy who was successfully treated with continuous positive airway pressure(CPAP) treatment. Interestingly, the patient was comorbid with the attention deficit hyperactivity disorder. Prior to the initial visit to us, adenotonsillectomy had been done at the age of 4 with no significant improvement of apneic symptoms and heavy snoring. On the initial diagnostic procedures, marked degree of snoring was audible even in the daytime wake state and the patient was observed to be very hyperactive. Increased pulmonary vascularity with borderline cardiomegaly was noted on chest X-ray. The baseline polysomnography revealed that the patient was very sleep-apneic and snored very heavily, with the respiratory disturbance index(RDI) of 46.9 per hour of sleep, the mean SaO<sub>2</sub> of 78.8%, and the lowest SaO<sub>2</sub> of 40.0%(the lowest detectable oxygen level by the applied oxymeter). The second night

\*본 논문의 요지는 1996년 6월 대한수면-정신생리학회 춘계학술대회에서 포스터 발표되었음.

\*\*서울대학교병원 신경정신과 및 수면다원검사실

*Department of Neuropsychiatry and Division of Sleep Studies, Seoul National University Hospital*

\*\*\*서울대학교병원 신경정신과 소아정신분과

*Division of Child-Adolescent Psychiatry, Department of Neuropsychiatry, Seoul National University Hospital*

†Corresponding author

polysomnography was done for CPAP titration and the optimal pressure turned out to be 8.0 cmH<sub>2</sub>O. The applied CPAP treatment was well tolerated by the patient and was found to be very effective in alleviating heavy snoring and severe repetitive sleep apneas. After 18 months of the CPAP treatment, the patient was followed up with nocturnal polysomnography(baseline and CPAP nights) and clinical examination. Sleep apneas were still present without CPAP on the baseline night. However, the severity of OSAS was significantly decreased(RDI of 15.7, mean SaO<sub>2</sub> of 96.2%, and the lowest SaO<sub>2</sub> of 83.0%), compared to the initial polysomnographic findings before initiation of long-term CPAP treatment. Wechsler intelligence tests done before and after the CPAP treatment were compared with each other and surprising improvement of intelligence(total 9 points, performance 16 points) was noted. Clinically he was found to be markedly improved in his attention deficit hyperactive behavior after CPAP treatment, but with minimal change of TOVA(test of variables of attention) scores except conversion of reaction time score into normal range. On the chest X-ray taken after 18 months of CPAP application, the initial cardiopulmonary abnormalities were not found at all.

We found that the CPAP treatment in a young child is very effective, safe, and well-tolerated and also improves the co-morbid attention deficit hyperactive symptoms. Overall, the growth and development of the child has been facilitated with the long-term use of CPAP. Cardiovascular complications induced by OSAS have been also normalized with CPAP treatment. We suggest that early diagnosis and active treatment intervention of OSAS in children are crucial in preventing and ameliorating possible serious complications caused by repetitive sleep apneas and consequent hypoxic damage during sleep.

**KEY WORDS :** Childhood obstructive sleep apnea syndrome · Attention deficit hyperactivity disorder · Continuous positive airway pressure treatment · Polysomnography · Intelligence · Growth and development.

————— *Sleep Medicine and Psychophysiology* 3(1) : 85-95, 1996

## 서 론

1892년 William Osler에 의해 최초로 기술된 소아기 폐쇄성 수면무호흡증은 그후 60년 이상이나 임상인들의 주목을 전혀 받지 못하였다(1, 2). 오랜 침묵을 깨고 비로소 1956년 Spector와 Bautista가 편도선염이 소아에서 상기도 폐쇄와 호흡장애를 유발한다고 보고했으며(3) 1976년 Guilleminault가 다시 소아기 폐쇄성 수면무호흡증 환자의 증례를 보고(4)하였음에도 1980년대 말까지 소아기 수면무호흡증을 소아에서 드문 질환으로 인식해 왔다. 현재도 소아기 수면무호흡증의 병태생리, 원인, 증상 등에 관해 밝혀진 내용은 성인기 수면무호흡증에 비해 매우 제한되어 있는 편이다.

이러한 일반적 인식의 제한에도 불구하고, 최근 연구

에 따르면 외국의 경우 소아기 폐쇄성 수면무호흡증의 유병율이 2%에 달할 것으로 추정되고 있다(2). 또한 이 질환이 성장기 소아에서 발생함에 따라 성인에 비해 심각하거나 심지어 치명적인 결과를 가져올 수 있다고 주장되고 있다. 특히 소아에서는 호흡장애에 따라 행동장애, 인지기능장애 그리고 심혈관계장애와 같은 합병증들이 잘 나타나는 경향이 있다. 이에 따라 국외에서는 소아기 폐쇄성 수면무호흡증의 심각성이 밝혀지면서 1990년대 초부터 조기 진단 및 치료에 관해 활발한 연구와 논의가 이루어지고 있음에 반해 아직 국내에서는 소아기 폐쇄성 수면무호흡증에 관한 인식이 미미한 실정에 있다.

이에 저자들은 본고에서 소아에서 폐쇄성 수면무호흡증과 주의력 결핍·과잉운동장애 그리고 심혈관계 이상 이 병발한 복합적 증례가 지속적 상기도 양압술(이하 양

압술) 치료를 통해 호전된 경우를 자세히 보고하고 제반 측면을 고찰하고자 한다. 이를 통해 국내에서 상기 질환에 관한 관심과 논의를 불러 일으키고자 한다.

## 증 례

5세된 남자 환아로서 코골이를 주소로 본원 소아과 외래를 방문하였다가 수면클리닉으로 의뢰되었다. 환아는 회사원인 아버지와 가정주부인 어머니사이에서 1남1녀중 첫째 아이로 태어났다. 임신 과정상 문제없이 정상 질식분만으로 출생하였다. 출생시 몸무게는 4.0kg이었다. 신생아기부터 수면중 호흡시 가슴 가운데 부위가 쑥 들어가는 역설적 흉곽축소운동(paradoxical inward rib cage motion)이 심하였다. 눈맞춤, 사회적 미소(social smile), 언어 발달, 대소변 가리기 등은 정상 발달과정을 거쳤다고 하였다. 과도한 활동성을 보이고, 사소한 일에도 많이 놀라며 겁이 많아 잘 우는 편이었다. 유치원에서 친구들을 괴롭히고, 규칙을 무시하고 자기 고집대로 하였다. 선생님의 지시에 상관없이 자기 마음대로 행동하고, 산만하고 충동적이며, 다른 아이들을 많이 때려 문제가 되곤 하였다. 3세경부터는 눈을 깜빡이고, 고개를 옆으로 하고 팔을 뒤로 젖히는 등 틱 증상을 보였다.

코골이는 2세경부터 심해졌으며 숨이 막힌다고 느끼면서 스스로 앉아서 자는 등 수면자세의 이상과 심한 몸부림(body movement)이 관찰되었다. 환자는 4세경 모 대학병원에서 편도 및 아데노이드 제거술(adenotonsillectomy)을 받았으며, 4세 반경에는 모 대학병원에서 만성

부비동염(chronic sinusitis), 중이염(otitis media) 및 천식(asthma)으로 진단받고 항생제 및 스테로이드를 사용한 병력이 있고, 당시 코골이는 경감되었으나 지속되었다.

내원당시 신장 116.8cm, 체중 26kg으로 신장은 연령별 소아평균치(5)의 상위 75~90%, 체중은 상위 97% 이상, 신장별 체중은 상위 97% 이상으로 발육부전은 아니었으나 심한 비만을 보였다. 환아는 말을 더듬고, 과잉 활동을 보였으며, 산만하였다. 가만히 앉아 있는 상태에서도 폐쇄성 호흡장애를 보여 야간의 코골이에 준하는 거친 숨소리를 지속적으로 들을 수 있었다. 지각, 감각, 사고의 특별한 장애는 보이지 않았다.

폐쇄성 수면무호흡증을 확진하기 위하여 일차로 수면다원검사를 시행하였다. 측정된 수면생리학적 변인들은 뇌파, 안전도, 하악 근전도(digastric muscle), 심전도, 코골이 소리, 비강공기흐름, 흡식호흡, 복식호흡, 전경골근(anterior tibialis muscle) 근전도, 혈중 산소포화도이었다. 수면다원검사상 매우 심한 정도의 폐쇄성 수면무호흡증이 관찰되었으며, 호흡장애지수(RDI, respiratory disturbance index)는 시간당 46.9회이었다. 행동적으로는 앉아서 자는 수면자세 및 심한 몸부림이 관찰되었다(Table 1, 2). 환아는 수면다원검사상 수면무호흡증의 결과로 저산소증을 심하게 보였으나 수면구조의 분절이나 서파수면의 감소는 특이하게 나타나지 않았다(Fig. 1).

내원당시 시행한 웨슬러 심리검사를 전체 지능지수는 90(언어성 100, 동작성 81)이었다. 언어성 지능은 보통 수준이었으나 동작성 지능은 보통 하 수준으로 상대적

Table 1. Comparison of sleep parameters between pre- and post-CPAP treatments

Sleep parameters	Pre-treatment		Post-treatment <sup>a</sup>	
	without CPAP	with CPAP	without CPAP	with CPAP
Time in bed(min)	480.0	213.0	490.0	494.0
Sleep period time(min)	466.3	209.0	482.5	475.9
Total sleep time(min)	464.3	207.0	482.0	450.8
Sleep latency(min)	13.2	0.5	8.0	18.1
Sleep efficiency(%)	97.0	97.0	98.0	91.0
Stage 1 sleep(%)	10.0	1.7	3.6	6.9
Stage 2 sleep(%)	39.2	17.5	31.8	23.4
Slow wave sleep(%)	38.0	58.9	48.5	31.7
REM latency(min)	134.2	4.5	150.2	51.2
Total REM sleep(%)	12.5	21.1	16.3	32.8

<sup>a</sup>CPAP(continuous positive airway pressure) treatment applied for 18 months, REM : rapid eye movement

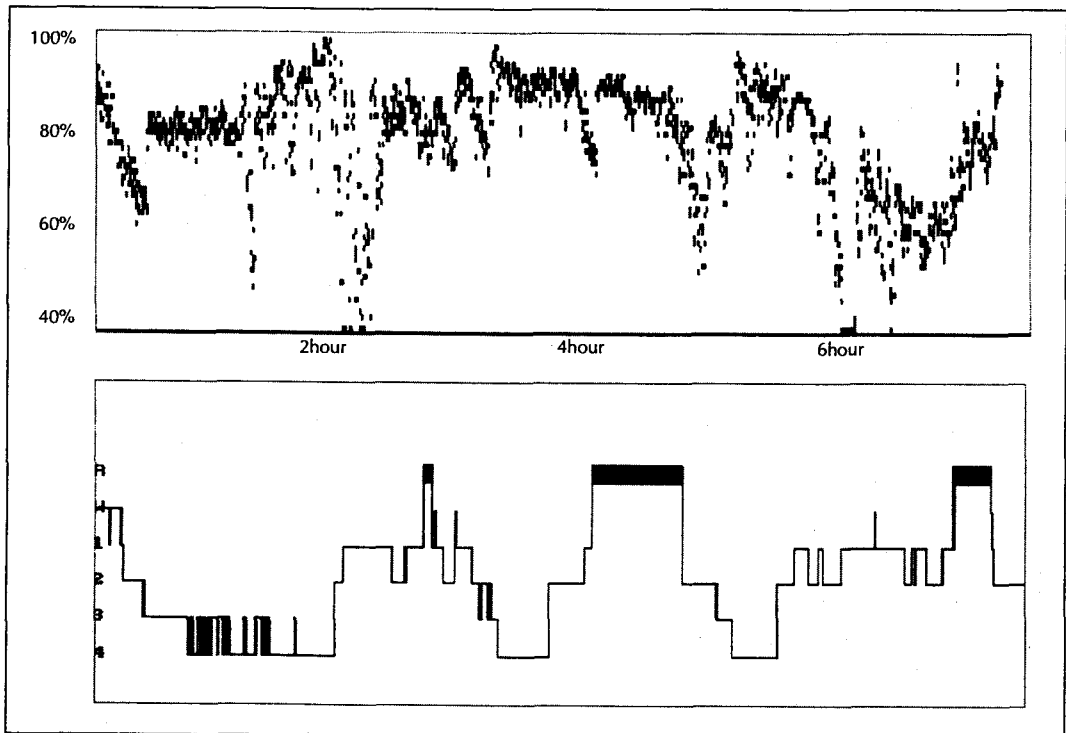
지체를 보여 뇌기능 장애가 시사되었고 B.G.T.e(Bender-Gestalt test)에서도 이에 부합되는 소견을 보였다. 인지적 영역에서 시각적 예민성(visual acuity)과 지각적 조직화(perceptual organization), 계기적 정보처리(sequential processing)의 지체를 보였으며, 주의력(attention)과 집중력(concentration) 장애를 보였다. 언어적 이해력은 보통 상 수준, 단순한 시각적 구성능력은 보통 수준으로 적절하게 발달되어 있었다. 환자의 언어적 이해력 중 일반적 지식은 보통 하 수준 정도이었으나, 추상적 개념형성능력과 어휘력은 우수한 수준

으로 발달되어 있어 잠재력은 우수할 것으로 판정되었다 (Table 3, 4). 내원당시 전산화된 주의력검사(TOVA : test of variables of attention)를 시행한 결과 인지적 충동성을 반영해 주는 오경보요류를 제외한 3가지 변인에서 65점 이상을 기록해 주의력 결핍·과잉 운동 장애에 부합되는 소견을 보였다(Table 3). 흉부 X-선 검사상 폐혈관성의 항진 및 경계성 심장확장(borderline cardiomegaly with slightly increased pulmonary vascularity) 소견을 보였다(Fig. 3). Hematocrit등 CBC 와 P.N.S.(paranasal sinus) view는 정상소견을 보였

**Table 2.** Comparison of sleep apnea severity and hypoxemia between pre- and post-CPAP treatments

	Pre-treatment		Post-treatment <sup>#</sup>	
	without CPAP	with CPAP	without CPAP	with CPAP
Snoring	Very severe	Absent	Severe	Absent
RDI <sup>†</sup>	46.9	1.3	15.7	1.4
Mean SaO <sub>2</sub> (%)	78.8	95.7	96.2	96.9
Lowest SaO <sub>2</sub> (%)	40.0	75.0	83.0	83.0
Highest SaO <sub>2</sub> (%)	98.0	98.0	100.0	99.0

<sup>#</sup>CPAP treatment applied for 18 months, <sup>†</sup>RDI : respiratory disturbance index (per hour of sleep)



**Fig. 1.** Oxymetry and hypnogram of the pre-treatment polysomnography without CPAP : note that severe hypoxia is repeated throughout the night.

다.

양압술의 치료효과 확인 및 처방압력 확정을 위해 일차수면검사후 별도의 날에 수면다원검사와 양압술을 병행 실시하였다. 그 결과 지속적 양압술이 환아의 코골이 및 수면 무호흡증을 해소시킬 수 있음을 확인하였으며 처방압력은 8.0cmH<sub>2</sub>O로 확정하였다(Table 1, 2, Fig. 5).

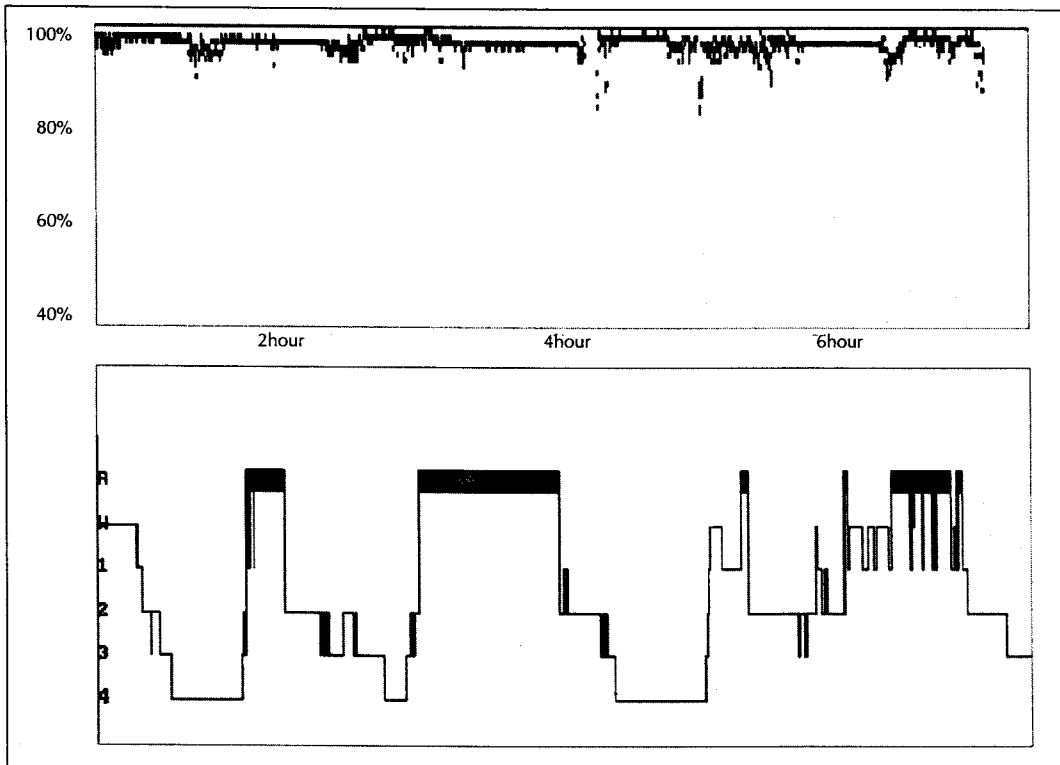
환아의 무호흡증 치료를 위해 양압술을 권고하였으며 환아는 그후 가정에서 양압술을 취침시간동안 지속적으로 시행하였다. 양압술용 마스크 착용에 관한 초기의 저항은 양압술 마스크와 공기 공급튜브를 이용한 "코끼리 놀이"와 어머니의 협조로 쉽게 해소시킬 수 있었다.

양압술 시작후 18개월간의 경과를 단계별로 보고하면 다음과 같았다. 우선, 지속적 양압술 시행 5개월후 과잉행동의 정도가 심해져 약물치료로 imipramine을 시작하여 현재까지 계속하고 있다(일일용량 25~75mg). 양압술 시행 1년후 포괄적 심리검사 및 전산화된 주의력검사를 재 시행한 결과를 보면 지능지수는 전체 지능지수 99(언어성 지능 101, 동작성 지능 97)로 치료전 전체

**Table 3.** Comparison of psychometric and TOVA findings between pre- and post-CPAP treatments

	Pre-treatment	Post-treatment*
B.G.T		
Poor line quality	severe	mild
Collision	severe	severe
Figure distortion	severe	mild
Rotation	severe	mild
Integration difficulty	severe	severe
Angulation difficulty	severe	mild
Recall	0	4
KEDI-WISC		
Verbal intelligence	100	101
Performance	81	97
Full scale intelligence	90	99
TOVA(T score)		
Omissions	97.4	89.3
Commissions	48.5	56.5
Reaction time	69.5	63.5
Variability	87.8	88.4

\*CPAP treatment applied for 12 months, B.G.T. : Bender-Gestalt test, KEDI-WISC : Korean Educational Development Institute-Wechsler Intelligence Scale for Children-Revised, TOVA : test of variables of attention



**Fig. 2.** Oxymetry and hypnogram of the repeated polysomnography with CPAP : note that hypoxia is markedly reduced.

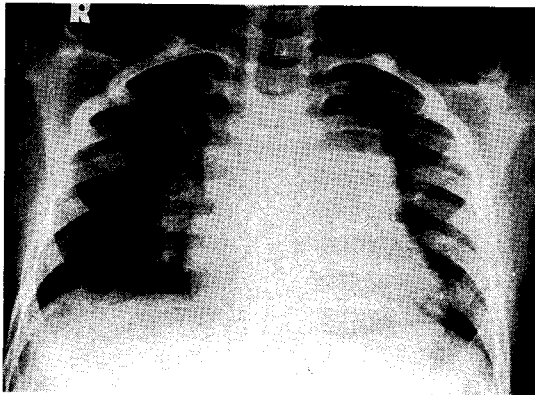
지능지수 90, 언어성 지능 100, 동작성 지능 81에 비해 크게 향상된 소견을 보였다(Fig. 6). B.G.T. 소견에서도 치료 전에 비해 시각-운동 통합능력의 향상이 관찰되었으며, 전반적 인지능력이 보통 하에서 보통 상수준으로 양압술 치료 이전에 비해 현저하게 상승하였다. 그러나 지속적 주의 집중능력과 관련된 소검사에서는 여전히 어려움을 보였다(Table 3, 4, Fig. 7).

양압술 시행 18개월 경과후 수면 무호흡증 지속 여부

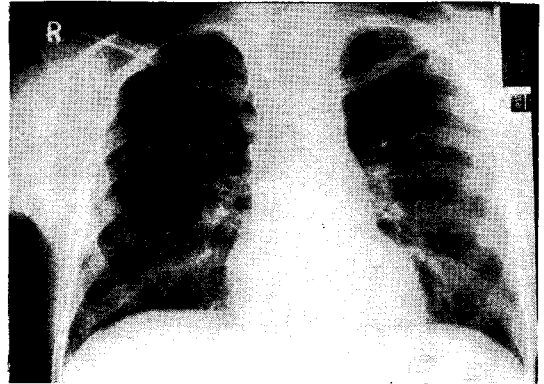
**Table 4.** Comparison of KEDI-WISC scores between pre- and post-CPAP treatments

		Pre-treatment	Post-treatment <sup>#</sup>
Verbal IQ	total	100	101
	information	9	10
	similarities	13	12
	arithmetic	8	8
	vocabulary	11	13
	comprehension	9	8
	digit span	7	8
Performance IQ	total	81	97
	picture completion	6	12
	picture arrangement	6	9
	block design	6	9
	object assembly	10	7
	digit symbol	9	11
	Full scale IQ	90	99

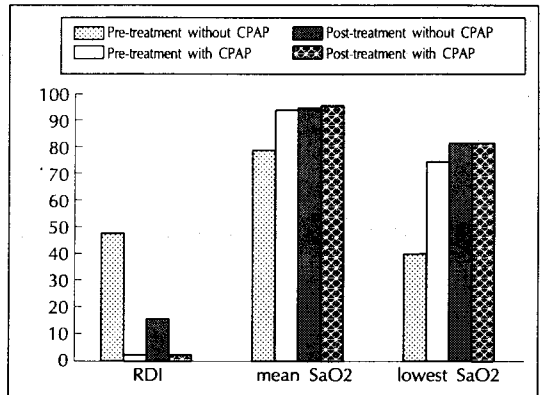
<sup>#</sup>CPAP treatment applied for 18 months



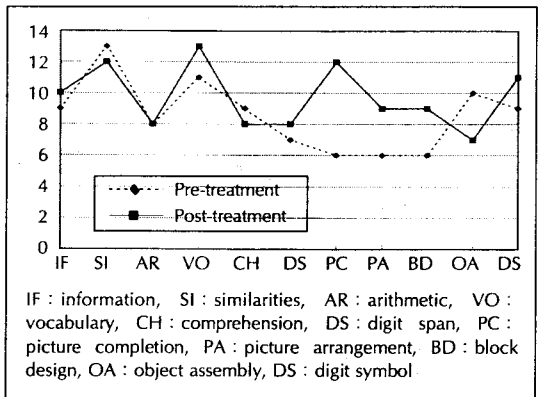
**Fig. 3.** Borderline cardiomegaly with slightly increased pulmonary vascularity is noted on the chest PA taken before the initiation of CPAP treatment in a 5-year-old boy with very severe obstructive sleep apnea syndrome(RDI=46.9/hour, mean SaO<sub>2</sub>=78.8%).



**Fig. 4.** Normalization of cardiomegaly with increased pulmonary vascularity is noted after 18-month application of continuous positive airway pressure treatment in a 5-year-old boy with very severe obstructive sleep apnea syndrome.



**Fig. 5.** Comparison of sleep apnea severity and hypoxemia between pre- and post-CPAP treatments(CPAP treatment applied for 18months).



**Fig. 6.** Comparison of KEDI-WISC subtest scores between pre- and post-CPAP treatments(CPAP treatment applied for 12months).

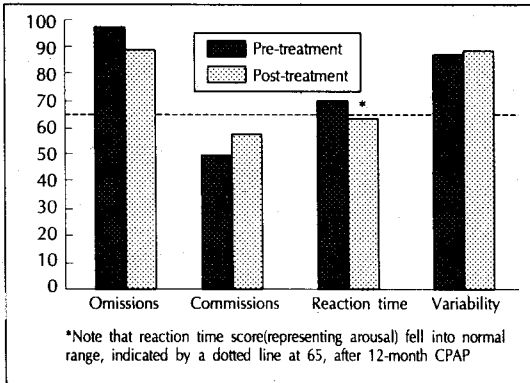


Fig. 7. Comparison of TOVA findings between pre- and post-CPAP treatments.

평가와 지속적 양압술 압력처방 조정을 위해 2차에 걸쳐 수면다원검사를 실시(기본검사 및 양압술 병행 검사)하였다. 당시 신장 128cm, 체중 28kg으로 신장 및 체중 모두 정상치의 97% 이상이었다. 신장별 체중은 상위 50~75%로 비만의 정도가 감소하고 신장이 급격하게 증가하는 변화가 있었다. 양압술을 병행하지 않은 기본 수면다원검사 결과에서도 Table 2에서 보는 바와 같이 18개월전에 비해 수면무호흡증의 정도가 현저히 호전된 소견을 관찰할 수 있었다. 양압술 병행 검사에서는 지속적 양압술이 무호흡 해소에 효과적임을 재확인하였으며 처방압력은 9.0cmH<sub>2</sub>O로 조정하였다. 치료전 발견된 폐혈관성의 항진 및 경계성 심장확장 소견은 양압술시행 18개월후 재 촬영한 흉부 X-선 필름에서 정상소견으로 전환되었음을 관찰할 수 있었다(Fig. 3, 4).

## 고 찰

소아에서 발생하는 폐쇄성 수면무호흡증은 이미 100여년 전에 그 존재가 알려졌다(1) 현재까지도 원인, 증상, 다른 질환과의 관계, 병태생리 등 여러 측면에서 밝혀진 것이 거의 없는 상태이다. 이는 대상환자가 소아 이어서 각종 조사의 어려움이 있다는 것에도 연유되지만 무엇보다도 초기의 보고가 오래 전에 이루어졌음에도 그동안 이 질환에 대한 임상인들의 관심이 부족하여 극히 최근에 와서야 각종 연구가 진행되었다는 점에 크게 기인한다.

현재까지 진행된 소아 폐쇄성 수면무호흡증의 유병률 조사연구는 수면다원검사에 기초하지 않았다는 조사방

범상의 문제로 인하여 정확한 유병률은 밝혀내지 못하고 있다. 그러나 최근의 연구들에서 소아에서 코골이는 7.0%부터 10% 정도로 나타나며(6, 7), 소아기 폐쇄성 수면무호흡증은 0.7%에서 3.4% 정도의 유병률을 나타낸다고 비교적 일관성 있게 보고되고 있다(8). 따라서 소아기 수면무호흡증의 유병률은 현재 일반적으로 약 2% 내외로 추정되고 있다(2). 폐쇄성 수면무호흡증은 특히 2세에서 5세 사이의 소아에서 많이 발생하는 것으로 보는데 이는 이 시기 동안에 편도나 아데노이드의 크기가 상대적으로 증가한다는 사실과 관련이 있을 것으로 생각된다(2).

소아 폐쇄성 수면무호흡증은 성인의 경우와 다른 특성을 보인다. 소아기는 신체적, 정신적 성장과 발달과정(growth and development)이 활발하게 진행되는 시기로서 이 시기에 수면무호흡증이 발병하면 성장과 발달 전반에 영향을 미칠 수 있다. 소아기 수면무호흡증은 놀랍게도 매우 초기에 나타나는 경우가 흔하다. 예를 들어 소아 폐쇄성 수면무호흡증으로 진단된 환자들의 병력을 조사한 결과 약 28%에서 생후 수개월 이내부터 코골이 등의 증상이 있었으며(9), 심지어 Brouillette(10)는 신생아의 폐쇄성 수면무호흡증을 보고한 바 있다. 본 증례의 환아에서도 신생아 시기부터 호흡곤란이 관찰되었다. 무호흡증이 발병하는 연령이 어릴수록 그에 따른 성장과 발달장애는 증폭될 것으로 판단된다. 구체적으로는 환아의 신체와 정신 모두에 심각한 영향을 미칠 수 있으며 성장 지체, 심혈관계 장애, 심하면 사망에 이를 수 있다. 본 증례에서 저자들이 관찰한 각종 증상과 합병증의 치료전, 후 변화에 관해 고찰해 보고자 한다.

### 1. 성장 지체

내원초기 발육부진은 아니었으나 심한 비만상태이었던 환아는 양압술 시행 18개월후 수면무호흡증의 호전에 따라 신장이 크게 증가하고 비만의 정도는 감소하는 등 성장이 정상화되었다. 이는 소아 폐쇄성 수면무호흡증환자에서 정상소아군에 비해 신장과 체중이 저하되며 이러한 성장장애가 수면무호흡증 교정후 회복된다는 연구보고들과 일치하는 소견이다(4, 11). 수면무호흡증에 따른 성장장애의 기전에 관해서 현재까지 규명된 바는 없으나 편도비대로 인한 식사장애, 저산소증(2), 고탄산혈증(12), 수면중 항진된 호흡노력으로 인한 열량소비

증가(13), 수면장애로 인한 수면중 성장호르몬 분비의 장애(14), 수면장애 자체 등 여러 요인들이 논의되고 있다.

## 2. 정신 및 행동장애

내원시 환아는 임상증상 및 전산화된 주의력검사에서 주의력 결핍·과잉운동 장애에 부합되는 소견을 보였으며, 특히 동작성 지능과 시각-운동 협응능력의 상당한 지체를 나타냈다. 상기 인지기능 장애들은 지속적 양압술 시행 18개월후 재검사에서 현저한 호전을 보였다. 비록 전산화된 주의력 검사 점수의 변화는 통계적으로 유의하지 않았으나 부주의(inattention)를 측정하는 누락 오류점수가 다소 감소되고 정반응을 하는데 걸리는 반응속도가 정상범위수준으로 다소 빨라졌으며(Table 3, Fig. 7), 임상적으로 주의력 결핍·과잉운동 증상의 현저한 호전을 관찰할 수 있었다. 이러한 변화는 병행한 약물치료로 인해 주의력 향상과 지능검사상의 호전이 일어났을 가능성을 고려해도 그 호전 정도가 매우 큰 폭이어서 호전의 상당부분은 양압술에 의한 수면무호흡증 해소에 기인할 것으로 판단된다. 이러한 추론은 Guillemainault등(4)이나 Brouillette(15)가 소아 폐쇄성 수면무호흡증에서 학업장애, 과잉행동, 지적 기능장애, 정서장애, 공격성 행동, 지나친 위축 등이 높은 빈도로 보였다고 한 보고, 그리고 수면무호흡증 교정후 행동장애가 호전을 보였다는 증례보고(10)와 일치하는 소견이다.

제반 인지증상들의 기전은 아직 잘 밝혀지지 않았으나, 수면구조 본질로 인한 각성장애, 저산소증(16), 고탄산혈증(17) 및 호흡시 흉곽내 압력의 극심한 변화로 인한 일시적 뇌혈류 감소(2) 등이 논의되고 있다.

인지기능 장애는 그 원인과 상관없이 성장기 소아에서 학업성취도에 직접적 영향을 준다. 또한 학업성취의 하락으로 인한 각종 이차적 정신질환을 야기할 가능성도 있어 폐쇄성 수면무호흡증에 따른 인지기능장애가 초래하는 후유증은 소아에서 성인에 비해 훨씬 심각할 가능성이 높다.

## 3. 호흡기 및 심혈관계 장애

본 증례에서 치료전 발견된 심비대 및 폐혈관성 항진 소견은 양압술 시행 18개월후 재검진시 이미 완전히 정상화된 소견을 보였다(Fig. 3, 4). 이러한 변화는 무호흡에 따른 심혈관계 부하가 양압술에 의해 해소되어 나타

난 것으로 판단된다. 성인에서와 달리 소아에서는 폐쇄성 수면무호흡증이 심각한 호흡기 및 심혈관계 질환을 흔히 유발하는 것으로 알려져 있다. 호흡장애로 인해 폐혈관압 상승이 유발되며 이로 인해 cor pulmonale, 폐혈관성 고혈압, 울혈성 심부전이 발생한다는 것은 1965년 Noonan등(18)의 보고 이래 여러 연구자들에 의해 확인된 바 있다. 특히 선천성 심기형을 동반한 다운증후군에서 폐혈관성 고혈압이 빈번하게 발생하며 그 발생원인중 상당부분이 폐쇄성 수면무호흡증과 연관되는 것으로 판단되고 있다. 폐쇄성 수면무호흡증에 따른 심혈관계질환의 발생빈도는 3.3%(19)에서 55%(10)까지 다양하게 보고되고 있다.

## 4. 수면중 이상행동

환아는 수면중 자주 몸을 움직여 자세를 바꾸고, 때로는 수면중 스스로 앉아서 자며, "몸부림"이 심하였다. 이러한 양상은 양압술 적용이후 현저히 감소한 것으로 보아, 상기도 폐색을 해소시키고자 하는 본능적 노력으로 보인다. 폐쇄성 수면무호흡증 환자의 야간 수면중 이상행동은 물론 성인기에서도 나타나지만 그 정도가 소아에서 더 심하다고 보고되고 있다. 소아 무호흡증의 수면자세 역시 본 증례에서 보는 바와 같이 목을 뒤로 젖히거나, 앉아서 자며, 무릎을 가슴에 붙인 자세를 취하는 등 특이한 경우가 많다는 것이 일반적 소견이다.

심한 "몸부림"은 진단적 측면에서 상당히 중요하다. 일반적으로 성인의 폐쇄성 수면무호흡증에서 코골이 및 무호흡이 진단적 단서로 많이 이용되나 소아에서는 다른 양상을 보인다. 소아에서는 폐쇄성 저호흡이 지속적으로 나타나면서도 주간졸림증, 행동장애, 체중감소 등 각종 증상을 유발할 수 있다(20, 21). 또한 소아의 경우에 성인에 비해 코골이 소리가 작기 때문에 코골이가 간과될 가능성이 크다. 따라서 소아의 경우 코골이 뿐 아니라 수면중 이상행동에 관한 충분한 조사가 진단시 철저하게 이루어져야 하겠다.

## 5. 수면구조

본 환아에서 시행한 모두 2차례의 기본 수면다원검사 기록을 비교해보면 심한 수면무호흡증에도 불구하고 서파수면의 유의한 감소는 관찰되지 않았으며 지속적 양압술에 의한 서파수면의 증가도 관찰되지 않았다(Fig. 1, 2).



기존 연구에서도 성인(22)에서의 달리 소아 폐쇄성 수면무호흡증 환자는 정상아와 같은 정도의 서파수면을 취하며, 특히 지속적 부분 폐쇄를 보이는 경우에는 수면구조의 분절을 보이지 않는다고 보고되고 있다. 그리고 Frank등(23) 및 Zucconi등(22)은 소아의 경우 아데노이드 및 편도제거술 전후의 수면단계분포가 차이가 없다고 보고하였다. 특히 Frank(9)등은 소아의 경우 수술 4~6주후 수면중 호흡양상이 현격한 호전을 보인다 하더라도 수술전에 비해 수면효율, 각성빈도 등에서 차이는 없었다고 보고하였다. 이러한 결과로 실제 소아 폐쇄성 수면무호흡증환자의 경우에는 소수에서만 주간각성장애를 호소한다고 알려져 있다.

소아 수면무호흡증에서 수면구조가 비교적 잘 유지되며 특히 깊은 수면인 서파수면이 감소되지 않는 것은 장점으로 간주될 수 있다. 그러나 동시에 수면무호흡증의 해소를 위한 각성역치를 상승시킴으로 인해 결과적으로 수면무호흡증이 일단 발생하면 성인에 비해 훨씬 심한 양상으로 발전할 가능성이 있다. 실제 본 증례에서 수면구조가 잘 유지됨에도 심한 무호흡증이 나타나는 것을 경험할 수 있었다.

또 한 가지 주목할 점은 환아에서 양압술 시행 5개월 후 나타난 주간 과잉운동양상의 심화이다. 세가지의 가능성을 생각해볼 수 있다. 즉 수면무호흡증에 의한 주간 졸림증이 양압술에 의해 해소되면서 나타나는 현상, 수면무호흡증을 극복하기 위한 반복적이고 격렬한 호흡노력으로 생긴 피로가 해소되어 발생한 현상, 그리고 무호흡증에 의해 야기된 인지기능의 장애가 호전되어 나타나는 현상 등을 생각해 볼 수 있으나, 어느 한 요인이라고 보기보다는 세가지 요인이 복합적으로 작용한 것으로 판단된다.

## 6. 소아 수면무호흡증과 지속적 양압술

소아 폐쇄성 수면무호흡증의 수술적 치료에서 성인과 달리 69%(24), 90%(25) 등 높은 성공률을 보고하고 있다. 이러한 보고들은 수면다원검사 결과에 근거하지 않아 그 결과의 객관성에 문제가 있으나 수술전후 수면다원검사를 실시한 Suen등(26)의 보고에 따르면 소아의 경우 성인에 비해 상대적으로 수술요법이 높은 성공률을 보일 것으로 추측된다.

그러나 본 증례와 같이 이미 수술적 치료(편도 및 아

데노이드 제거술)를 시행하였으나 무호흡증이 호전되지 않은 경우 당연히 양압술치료의 대상이 될 수 있다. 일반적으로 소아환자에서 양압술 권고시 순응도가 떨어질 가능성을 우려하나 실제로 소아 폐쇄성 수면무호흡증에서 양압술이 상당히 광범위하게 사용되는 실정이다. 이미 Marcus등(27)과 Waters등(28)은 각각 94명 및 80명의 환아에서 양압술을 시행하여 각각 86% 및 90%의 순응도를 보고한 바 있다. 그 대상군에는 본 증례와 같이 편도 및 아데노이드 제거술 후에도 교정되지 않은 경우, 다운증후군 및 안면기형 등 선천성 질환자, 비만아 등 다양한 경우의 소아 폐쇄성 수면무호흡증이 포함되어 있는 바 양압술을 매우 넓은 범위의 적응증에서 범용으로 사용할 수 있음을 알 수 있다. 본 증례의 경우 이미 18개월 이상 계속 양압술을 시행하고 있으며 현재 어머니의 도움 없이 환아 스스로 양압술기기를 조작하는 등 효과적일 뿐 아니라 순응도도 높았다. 소아 폐쇄성 수면무호흡증에서 양압술은 안전하며, 효과적이고, 순응도가 높은 치료법임을 본 증례에서 경험하였다.

양압술 시행시 성인과 소아의 차이는 환아의 성장에 따라 양압술 처방압력의 변화가 일어날 수 있다는 점이다. 아직 성장에 따른 신체변화가 지속적 양압술 처방압력에 미치는 영향에 관해 일관된 보고는 없으나 6개월에서 1년마다 수면다원검사를 재실시하여 압력을 조정해 줄 필요성은 언급되고 있다(29). 본 증례에서 지속적 양압술 시행 18개월 후 다시 시행한 검사상 수면무호흡증의 정도는 현저히 호전되었으나 치료압력은 1cmH<sub>2</sub>O 증가되는 양상이 관찰되었다.

소아 폐쇄성 수면무호흡증에서 양압술적용 적응증에 관해 명시적으로 결정된 바는 없으나 다음과 같은 경우 고려되어야 할 것이다. 첫째, 본 증례와 같이 아데노이드 및 편도제거술 이후에도 수면무호흡증이 지속되는 경우이다. 둘째, 수술적 치료가 환아의 향후 성장과 발달에 심각한 영향을 줄 우려가 있어 수술이 가능한 연령까지 수술 연기가 바람직한 경우이다(28).

## 요약 및 결론

외국의 유병률 조사결과로 미루어 보아 국내에도 상당수의 소아 폐쇄성 수면무호흡증 환자가 있을 것으로 판단된다. 본 증례에서 제시된 바와 같이 소아기 수면무호

흡증은 성장과 발달 전반에 영향을 미치며 심혈관계장애, 인지기능장애, 주의력 집중장애, 과잉운동, 대인관계장애와 같은 문제를 유발시킬 가능성이 크다. 따라서 소아의 수면 무호흡증에서 그 자체의 치료뿐 아니라 성장 및 발달과 연관된 합병증 발병의 예방 측면에서도 조기 진단과 조기치료가 필수적임을 강조하고자 한다. 또한 소아 폐쇄성 수면무호흡증에서도 성인과 같이 지속적 양압술이 효과적이고 안전하며 순응도 높게 사용될 수 있음을 본 증례에서 확인한 점도 향후 소아 무호흡증 치료에 유의한 지침이 될 수 있을 것으로 판단된다.

중심 단어 : 소아기 폐쇄성 수면무호흡증 · 주의력 결핍 · 과잉운동장애 · 지속적 상기도 양압술 · 수면 다원검사 · 지능 · 성장 및 발달.

## REFERENCES

- 1) Osler W. Chronic tonsillitis(1892), cited from Carroll JL, Loughlin GM, Obstructive sleep apnea syndrome in infants and children : clinical features and pathophysiology, In : Principles and Practice of Sleep Medicine in the Child, ed by Ferber M and Kryger M, Saunders, Philadelphia, 1995 ; 163-186.
- 2) Carroll JL, Loughlin GM. Obstructive sleep apnea syndrome in infants and children : clinical features and pathophysiology. In : Principles and Practice of Sleep Medicine in the Child, ed by Ferber M and Kryger M, Saunders, Philadelphia, 1995 ; 163-186.
- 3) Spector S, Bautista AG Respiratory obstruction caused by acute tonsillitis and acute adenoiditis. NY State J Med 1956 ; 56 : 2118.
- 4) Guilleminault C, Eldrige F, Simmons FB, Dement WC. Sleep apnea in eight children. Pediatrics 1976 ; 58 : 234.
- 5) 홍창의. 소아의 정상치 : 소아과 진료 제7판, 서울, 고려의학, 1994 ; 4-9.
- 6) Ali NJ, Pitson DJ, Stradling JR. Snoring, sleep disturbance, and behaviour in 4-5 year olds. Arch Dis Child 1993 ; 68 : 360-366.
- 7) Benediktsdottir B, Gislason T. Sleep related breathing disturbances among children 6 months to 6 years old(abstract). European Sleep Research Society, Strasbourg, 1990 ; May 20-25.
- 8) Ali NJ, Pitson DJ, Stradling JR. The prevalence of snoring, sleep disturbance and sleep related breathing disorders and their relation to daytime sleepiness in 4-5 year old children. Am Rev Respir Dis 1991 ; A381 : 143.
- 9) Frank Y, Kravath RE, Pollak CP, Weitzman ED. Obstructive sleep apnea and its therapy : clinical and polysomnographic manifestation. Pediatrics 1983 ; 71 : 737.
- 10) Brouillette RT, Fernbach SK, Hunt CE. Obstructive sleep apnea in infants and children. J Pediatr 1982 ; 100 : 31.
- 11) Guillemomault C, Korobkin, Hoshino T. A review of 50 children with obstructive sleep apnea syndrome. Lung 1981 ; 159 : 275.
- 12) Bate TW, Price TA, Holme CA, McGucken RB. Short stature caused by obstructive apnea during sleep. Arch Dis Child 1984 ; 59 : 78.
- 13) Marcus CL, Carroll JL, Koerner CB, Hamer A, Lutz J, Loughlin GMTI. Determinants of growth in children with the obstructive sleep apnea syndrome. J Pediatr 1994 Oct ; 125(4) : 556-F62.
- 14) Goldstein SJ, Wu RH, Thorpy MJ, Shprintzen RJ, Marion RE, Saenger P. Reversibility of deficient sleep entrained growth hormone secretion in a boy with achondroplasia and obstructive sleep apnea. Acta Endocrinol(Copenh) 1987 ; 116 : 95.
- 15) Brouillette RT, Hanson D, David R, Hunt CE. A diagnostic approach to suspected obstructive sleep apnea in children. J Pediatrics 1984 ; 105 : 10.
- 16) Findley LJ, Barth JT, Powers C, Wilhoit SC, Boyd DG, Suratt PM. Cognitive impairment in patients with obstructive sleep apnea and associated hypoxemia. Chest 1986 ; 90 : 686.
- 17) Lind MC, Lundell BP. Tonsillar hyperplasia in children : A cause of obstructive sleep apnea, CO<sub>2</sub> retention, and retarded growth. Arch Otolaryngol 1982 ; 108 : 650.
- 18) Noonan JA. Reversible cor pulmonale due to hypertrophied tonsils and adenoids : studies in two cases. Circulation 1965 ; 32 : 164.
- 19) Wilkinson AR, McCormick MS, Freeland AP, Pick-

- ering D. Electrocardiographic signs of pulmonary hypertension in children who snore. *Br Med J* 1981 ; 282 : 579.
- 20) Konno A, Togawa K, Hoshino T. The effect of nasal obstruction in infancy and early childhood upon ventilation. *Laryngoscope* 1980 ; 90 : 699.
- 21) Guilleminault C, Winkle R, Korobkin R, Simmons B. Children and nocturnal snoring : evaluation of the effects of sleep related respiratory resistive load and daytime functioning. *Eur J Pediatr* 1982 ; 139 : 165.
- 22) 정도인. 폐쇄성 수면무호흡증의 수면구조분석. *정신의학* 18(1) : 1-11
- 23) Zucconi M, Strambi LF, Pestalozza G, Tessitore E, Smirne S. Habitual snoring and obstructive sleep apnea syndrome in children : effects of early tonsil surgery. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1993 ; 26 : 235.
- 24) Bower CM, Richmond D. Tonsillectomy and adenoidectomy in patients with Down syndrome. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 1995 ; 33(2) : 141-148.
- 25) Burstein FD, Cohen SR, Scott PH, Teague GR, Montgomery GL, Kattos AV. Surgical therapy for severe refractory sleep apnea in infants and children : application of the airway zone concept. *Plast Reconstr Surg* 1995 ; 96(1) : 34-41.
- 26) Suen JS, Arnold JE, Brooks LJ. Adenotonsillectomy for treatment of obstructive sleep apnea in children. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1995 ; 121(5) : 525-530.
- 27) Marcus CL, Ward SL, Mallory GB, Rosen CL, Beckerman RC, Weese Mayer DE, Brouillette RT, Trang HT, Brooks LJ. Use of nasal continuous positive airway pressure as treatment of childhood obstructive sleep apnea. *J Pediatr* 1995 ; 127(1) : 88-94.
- 28) Waters KA, Everett FM, Bruderer JW, Sullivan CE. Obstructive sleep apnea : the use of nasal CPAP in 80 children. *Am J Respir Crit Care Med* 1995 ; 152(2) : 780-785.
- 29) American Thoracic Society. Indications and standards for use of nasal continuous positive airway pressure(CPAP) in sleep apnea syndromes. *Am J Respir Crit Care Med* 1994 ; 150(6 Pt 1) : 1738-1745.