

선천성 심장병 환아에서 음향학적 요소의 변동

전북대학교 의학전문대학원 소아과학교실, 심혈관연구소*

오정은 · 최윤미* · 김선준 · 주찬웅*

= Abstract =

Acoustic variations associated with congenital heart disease

Jung Eun Oh, M.D., Yoon Mi Choi, M.S.*, Sun Jun Kim, M.D. and Chan Uhng Joo, M.D.*

Department of Pediatrics, Chonbuk National University Medical school,
Institute of Cardiovascular Research*, Jeonju, Korea

Purpose : To investigate the nature of deviant voice physiology in preoperative children with congenital heart disease.

Methods : Ninety-four children with congenital heart disease were enrolled. Their cries and related acoustic variables (fundamental frequency, duration, noise to harmonic ratio, jitter, and shimmer) were analyzed using a multi-dimensional voice program.

Results : The average fundamental frequency showed a significant decrease in patent ductus arteriosus, ventricular septal defect, and tetralogy of Fallot, except in atrial septal defect and pulmonary stenosis. The length of the analyzed sample (duration) did not show a significant difference when compared with the control group. There was a significant increase in jitter percent in ventricular septal defect, patent ductus arteriosus, and atrial septal defect. There was an increase in shimmer in ventricular septal defect, patent ductus arteriosus, and atrial septal defect. The noise-to-harmonic ratio increased in ventricular septal defect, patent ductus arteriosus, and atrial septal defect but there was no significant difference in pulmonary stenosis and tetralogy of Fallot. While analyzing acoustic variables, the voice change was significantly higher, especially in patent ductus arteriosus followed by ventricular septal defect and atrial septal defect. Most of these acoustic variables were deviant in left-to-right shunt lesions in congenital heart disease, especially in patent ductus arteriosus.

Conclusion : The results of the voice change analysis of preoperative children with congenital heart disease revealed that the acoustic variables differed by each congenital heart disease. Moreover, the acoustic variables were prominently deviant in congenital heart disease with left-to-right shunts. (*Korean J Pediatr* 2010;53:190-194)

Key Words : Cardiovascular syndrome, Hoarseness, Acoustic variation, Congenital heart disease

서 론

Ortner¹⁾에 의해 승모관 협착 환자에서 좌측회귀 후두신경의 마비로 인한 애성 (hoarseness)이 보고된 이래 다른 여러 심혈관 환자들에서도 애성 등 음성 변동이 보고되고 있으며 이 경우 심 후두 증후군 (cardiovascular syndrome)으로 불려왔다²⁻⁶⁾. 이러한 애성은 소아 심장병 환자에서도 호흡곤란 및 체중 증가 지연 등의 증상과 함께 관찰 될 수 있다^{7, 8)}. 그러나 이러한 심장병과 관련된 음성 특징에 대한 음향학적 변동 분석 연구는 아직까지 발

표된 바가 없다. 저자들은 소아 선천성 심장병 환아를 대상으로 선천성 심장병 종류에 따른 음성 변동을 음향 분석기기를 통하여 분석하고자 하였다.

대상 및 방법

1. 대 상

2007년 2월부터 2009년 6월까지 전북대학교병원 소아청소년과에 내원한 수술 전 선천성 심장병 환아 94명을 연구 대상으로 하였고 평균 연령은 7±7.3개월이었으며 남녀 비는 51:43 이었다. 연구 대상인 선천성 심장병 질환별 분포는 심실 중격 결손 48명, 동맥관 개존 22명, 심방 중격 결손 12명, 폐동맥 협착 9명, 활로 사지 3명 순이었으며 대조군은 예방접종을 위해 내원한 해당 연령대의 건강한 소아로, 연구 대상군과 같은 강도의 자극

Received : 10 November 2009, Revised : 25 November 2009

Accepted : 11 December 2009

Address for correspondence : Chan Uhng Joo, M.D.

Department of Pediatrics, Chonbuk National University Medical school,
634-18, Geumam-dong Deokjin-gu, Jeonju-si Jeollabuk-do, 561-712, Korea
Tel:+82-63-250-1471, Fax: +82-63-250-1464

E-mail: joocu@chonbuk.ac.kr

후 발생한 울음을 통하여 얻어진 음향학적 지표를 이용하였다. 음향 분석을 포함한 환자 정보를 환자 보호자의 동의를 얻어 자료로 사용하였다.

2. 방법

음성 변동을 연구하기 위한 음향 지표 분석은 대상 환아들의 발바닥 통증 자극 시 얻어진 울음을 이용하였고, 한 명의 음향 분석 연구자가 비슷한 강도의 자극을 시행하였다. 연구 자료 음성은 환아 구강으로부터 10 cm 거리에서 Shure SM 48 microphone (Shure Incorporated, Niles, IL, USA)으로 얻어진 울음을 multi-dimensional voice program system (KAY Elemetrics, USA)을 이용하여 sampling rate 50,000 Hz 환경에서 저장, 비교 분석하였다. 음성 자료는 전체 울음에서 분석이 가능한 첫 번째 울음을 분석하였다.

본 연구에 사용된 음향 지표로 average fundamental frequency (Fo), length of analyzed sample (duration), jitter percent (jitter), shimmer, noise to harmonic ratio (NHR)를 분석 자료로 이용하였다⁹⁻¹².

3. 통계학적 분석

자료의 분석은 얻어진 음성 지표들을 SPSS for windows (version 12.0, SPSS, Chicago, IL, USA) 프로그램을 이용하여 통계적 유의성을 검정하였다. 선천성 심장병 환아의 음성과정상 대조군의 음성을 independent t-test로 검정하였고 *P* 값이 0.05 미만인 경우 통계적으로 유의하다고 판단하였다.

결 과

선천성 심장병 환아들의 통증 자극 시 얻어진 울음을 Multi-dimensional Voice Program system을 이용하여 저장하고 비교 분석하였는데(Fig. 1) 각각의 음향지표 결과는 다음과 같다(Table 1).

1. Average fundamental frequency (Fo) 지표는 심방 중격 결손(455.4±44.2 Hz), 폐동맥 협착(430.6±97.2 Hz)의 경우를 제외하고 동맥관 개존(402.4±78.8 Hz), 심실 중격 결손(429.9±69.8 Hz), 활로 사정(454.6±107.4 Hz)에서 대조군(482.9±51.5 Hz)에 비해 유의한 감소를 나타냈다(*P*<0.01).

2. Length of analyzed sample (duration)은 연구 대상 선천성 심장병 환아 모두에서 대조군에 비해 의미있는 차이를 나타내지 않았다.

3. Jitter percent (jitter)는 심실 중격 결손(2.3±1.5%), 동맥관 개존(4.3±3.3%), 심방 중격 결손(2.0±1.2%)에서 대조군(0.8±0.3%)에 비해 유의한 증가를 나타냈으나(*P*<0.05) 폐동맥 협착과 활로 사정의 경우 의미있는 차이를 보이지 않았다.

4. Shimmer는 심실 중격 결손(0.7±0.3 dB), 동맥관 개존(1.0±0.5 dB), 심방 중격 결손(0.6±0.3 dB)에서 대조군(0.4±0.1 dB)에 비해 유의한 증가를 나타냈으나(*P*<0.05) 폐동맥 협착과 활로 사정의 경우 의미 있는 차이를 보이지 않았다.

5. Noise to harmonic ratio (NHR)는 심실 중격 결손(0.3±0.2), 동맥관 개존(0.5±0.3), 심방 중격 결손(0.4±0.2)에서 대조군(0.1±0.1)에 비해 유의한 증가를 나타냈으나(*P*<0.05) 폐동맥 협착과 활로 사정의 경우 의미있는 차이를 나타내지 않았다.

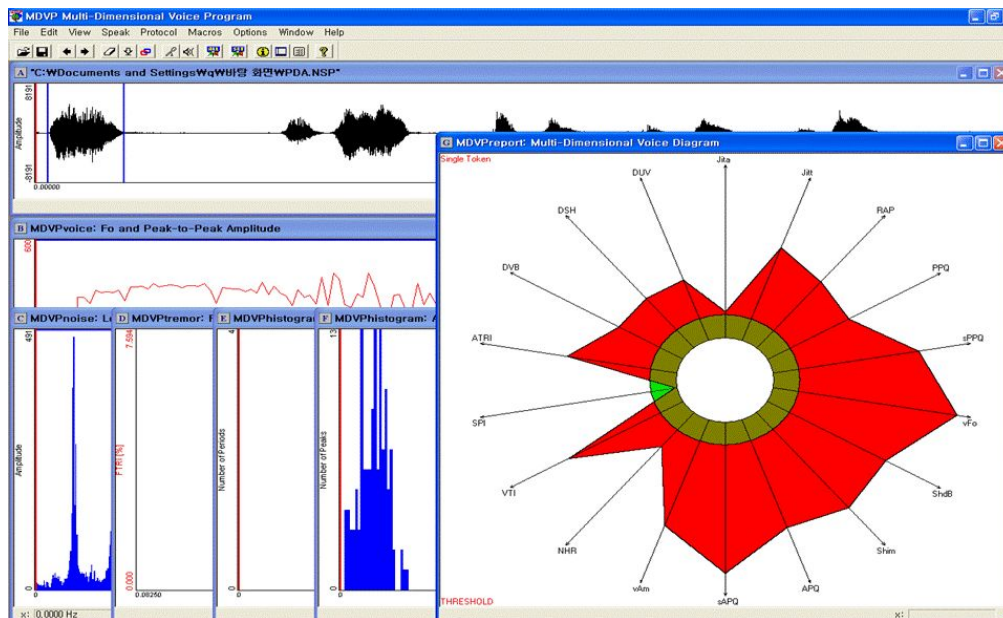


Fig. 1. Photograph shows the acoustic variables in an infant with patent ductus arteriosus.

Table 1. Acoustic Variables in the Congenital Heart Diseases

Parameter	VSD	PDA	ASD	PS	TOF	Control
Fo (Hz)	429.9 (69.8)*	402.4 (78.8)*	455.4 (44.2)	430.6 (97.2)	454.6 (107.4)*	482.9 (51.5)
Duration (ms)	1.3 (0.5)	1.2 (0.7)	1.3 (0.6)	1.3 (0.6)	1.9 (1.0)	1.4 (0.7)
Jitter (%)	2.3 (1.5)*	4.3 (3.3)*	2.0 (1.2) [†]	1.2 (1.1)	0.9 (0.6)	0.8 (0.3)
Shimmer (dB)	0.7 (0.3)*	1.0 (0.5)*	0.6 (0.3) [†]	0.5 (0.3)	0.5 (0.4)	0.4 (0.1)
NHR	0.3 (0.2)*	0.5 (0.3)*	0.4 (0.2) [†]	0.2 (0.1)	0.3 (0.2)	0.1 (0.1)

Current data are described as mean (SD)

* $P < 0.01$, [†] $P < 0.05$

Abbreviations : VSD, ventricular septal defect; PDA, patent ductus arteriosus; ASD, atrial septal defect; PS, pulmonic stenosis; TOF, tetralogy of Fallot; Fo, fundamental frequency; NHR, noise to harmonic ratio

고 찰

심장병 환자에서 관찰될 수 있는 애성 등 음성 변동은 호흡곤란 등의 증상과 함께 다른 여러 심장병 환자에서 관찰 될 수 있다¹⁻⁸). 그러나 심장병과 관련된 이러한 음성 특징에 대한 음성학적 변동 분석 연구는 아직까지 보고된 바가 없다. 여러 병적 상황에서 나타나는 음성 변동 증상은 음향학적 분석으로 평가가 가능하므로⁹⁻¹²), 저자들은 소아 영역 심장 질환 중 여러 선천성 심장병 종류에 따른 음성 변동을 음향학적 기기를 통해 분석해보고자 하였다.

발성을 가능하게 하는 정상 후두는 상 후두신경(superior laryngeal nerve)과 회귀 후두신경(recurrent laryngeal nerve)에 의한 신경 지배를 받는다. 특히 좌측 회귀 후두신경은 흉곽 내에서 좌측 미주신경에서 분지되어 대동맥궁을 지나고 동맥관 인대(ligamentum arteriosum)를 걸고 상행 회귀하여 후두의 운상갑상근(cricothyroid muscle)을 제외한 후두 근육을 신경 지배하여 발성 등 성대 기능에 중요한 역할을 담당하며 또한 성대 이하부위 후두의 감각 신경 역할을 갖는다. 그런데 Ortner¹⁾에 의해 승모관 협착 환자에서 애성을 보이는 음성 변동이 좌측 회귀 후두신경의 마비와 관련된 것으로 보고한 이래 다른 심장 및 혈관 질환에서 음성 변동이 보고되고 있으며 이러한 현상은 심후두 증후군(cardiovoal syndrome) 또는 Ortner 증후군으로 명명되고 있다¹⁻⁸⁾.

이러한 심후두 증후군은 소아 선천성 심장병 환자에서 보고되고 있으며 아이젠멩거 증후군에서도 관찰된다^{3-5, 13-17)}. 또한 심장병 치료 직후에도 수술 또는 시술 자체로 인한 성대 마비와 연관된 음성 변동을 관찰할 수 있는데¹⁹⁻²³⁾, 특히 동맥관 개존 환자에서 수술이나 중재적 시술 후 병변 부위와 근접된 좌측 회귀 후두신경의 손상으로 인한 성대 마비 증상이 보고되고 있다¹⁶⁻¹⁸⁾. 이러한 좌측 회귀 후두신경 마비는 확장된 좌심방에 의해 좌측 회귀 후두신경이 대동맥궁 쪽으로 눌려지고^{2, 3)}, 대동맥과 폐동맥 사이의 간격이 협소하여 이 부위를 통과하는 좌측 회귀 후두신경이 압박되어 초래된 것으로 여겨진다⁶⁾. 그리고 이러한 좌측 회귀 후두신경 마비는 신경 자체에 대한 압박 등 물리적 영향뿐만 아

니라 시술이나 수술 시 전기적 자극이나 온도 자극 또는 허혈성 자극에 의해서도 초래될 수 있는데^{15-17, 21)}, 종격동내 여러 구조물이 영향을 줄 수 있으며²⁴⁾ 그 신경 손상 정도는 손상의 정도 및 기간에 따라 회복에 차이를 보인다. 특히 좌측 회귀 후두신경에 대한 허혈성 손상 시 불완전 회복을 보일 수 있다⁶⁾.

본 연구의 결과에서와 같이 좌우 단락을 보이는 선천성 심장병의 경우, 증가된 좌우 단락에 의한 폐동맥 확장이 대동맥과 폐동맥 사이에 있는 좌측 회귀 후두신경을 압박하였으리라 추정된다. 한편, 활로 사장의 경우 음성 요소의 변동이 의미있게 적었는데 활로 사장의 병리 소견의 하나인 폐동맥 협착과 관련하여 폐동맥 직경이 매우 작으므로 다른 좌우 단락 심장병 군에서 보이는 폐동맥 확장 소견과는 다르게 좌측 회귀 후두신경에 대한 영향이 없으므로 음성 요소의 변동이 적은 것으로 생각된다.

또한 본 연구 결과에서 좌우 단락 선천성 심장병 중 동맥관 개존의 경우 음성 요소의 변동이 더욱 현저한 것은 동맥관 개존에서 동반되는 증가된 좌우 단락 양에 의해 폐동맥 확장뿐만 아니라 동맥관 개존 병변 부위까지의 상행 대동맥 및 동맥궁의 확장이 동시에 수반되어 두 해부학적 구조물 사이를 지나는 좌측 회귀 후두신경의 압박에 더 많은 영향을 주었기 때문이라고 생각된다.

한편, 정상 발성을 이루기 위해서는 정상 폐기능이 절대적이어서 폐기능이 약화시 음성의 지속 시간 및 강도 등 음성 요소들의 악화 소견이 초래된다²⁵⁻²⁷⁾. 본 연구 대상인 좌우 단락을 보이는 선천성 심장병의 경우 증가된 좌우 단락으로 폐동맥 울혈과 폐부종 소견을 동반할 수 있으며 이러한 폐기능을 제한시키는 조건은 음성의 약화를 수반할 수 있다^{28, 29)}. 따라서 본 연구의 결과인 좌우 단락군 심장병 환자에서 음성학적 요소의 변동은 심질환과 동반된 폐기능 약화도 함께 연관되었으리라 생각된다.

본 연구와 관련하여 대상 환자들의 심장 초음파 검사에서 대동맥과 폐동맥의 직경 비를 일차 분석하였는데 폐동맥 직경의 상대적 비율이 증가할수록 음성 변이가 더 많았던 예비 결과를 얻은 바 있어, 향후 이러한 관련 혈관의 확장에 대한 심장 초음파 소견과 음성 변이 정도 사이의 연관성과 좌우 단락 양에 따른 음성 변동 정도의 상관성에 대한 연구도 필요하리라 생각된다. 또한 대상 선천성 심장병 환자들이 수술 치료 후 확장된 폐동맥 크기가 정상화되면서 음성 변이 정도가 호전될 가능성이 있어³⁰⁾ 추후 이

리한 수술 후 음성 호전 결과에 대한 연구 분석도 필요하리라 생각된다.

요 약

목적: 애성 및 음성 변동은 심장병 환자에서 관찰될 수 있는데 이러한 음성 변동 정도를 음향학적 지표의 평가로 분석하여, 소아에서 선천성 심장병 종류에 따른 음성 변동을 음향학적 요소로 분석하고자 하였다.

방법: 수술 전 선천성 심장병 환자 94명을 연구 대상으로 하였고 심실 중격 결손, 동맥관 개존, 심방 중격 결손, 폐동맥 협착, 활로 사지가 포함되었으며, 음성 변동을 조사하기 위한 음향 지표 분석은 통증 자극을 통하여 얻어진 음성 자료를 multi-dimensional voice program system을 이용하여 평가하였다. 연구에 사용된 음향 지표로 average fundamental frequency, length of analyzed sample, jitter percent, shimmer, noise to harmonic ratio를 분석하였다.

결과: 음향 지표인 average fundamental frequency은 동맥관 개존, 심실 중격 결손, 활로 사지 경우에서 유의한 감소를 나타냈으며, length of analyzed sample은 연구 대상 선천성 심장병 환자에서 대조군에 비해 의미있는 차이를 나타내지 않았다. Jitter percent, shimmer, noise to harmonic ratio는 심실 중격 결손, 동맥관 개존, 심방 중격 결손에서 대조군에 비해 증가되었다. 이러한 음성 변동은 연구 대상 선천성 심장병 중 동맥관 개존에서 음도변이, 강도변이, 음성의 소음 정도가 가장 뚜렷하게 나타났으며, 동맥관 개존, 심실 중격 결손, 심방 중격 결손 순으로 그 음성 변동의 특징을 나타냈다.

결론: 수술 전 선천성 심장병 환자에서 음성을 음향학적 지표로 비교 분석한 결과 음향학적 지표들이 심장 질환의 유형별 차이를 보이는데 좌우 단락 심질환군에서 현저한 비정상적 음향학적 지표를 나타냈다.

References

- Ortner N, Recurrenslahmung bei mitral stenose. Wien Klin Wochenschr 1897;10:753-5.
- Wunderlich C, Wunderlich O, Tausche AK, Fuhrmann J, Boscheri A, Strasser RH. Ortner's syndrome or cardiovascular hoarseness. Intern Med J 2007;37:418-9.
- Chan P, Lee CP, Ko JT, Hung JS. Cardiovascular (Ortner's) syndrome left recurrent laryngeal nerve palsy associated with cardiovascular disease. Eur J Med 1992;1:492-5.
- Robida A, Povhe B. Cardiovascular syndrome in an infant with a double outlet of the right ventricle. Eur J Pediatr 1988;148:15-6.
- Krishnamurthy SN, Paulose KO. Vocal cord paralysis with Ebstein's anomaly. J Laryngol Otol 1989;103:626-8.
- Mulpuru SK, Vasavada BC, Punukollu GK, Patel AG. Cardiovascular syndrome: a systematic review. Heart Lung Circ 2008;17:1-4.
- Polaner DM, Billet AL, Richardson MA. Cardiovascular syndrome. Pediatrics 1986;78:380.
- Condon LM, Katkov H, Singh A, Helseth HK. Cardiovascular syndrome in infancy. Pediatrics 1985;76:22-5.
- Zhang Y, Jiang JJ. Acoustic analyses of sustained and running voices from patients with laryngeal pathologies. J Voice 2008;22:1-9.
- Bielamowicz S, Kreiman J, Gerratt BR, Dauer MS, Berke GS. Comparison of voice analysis systems for perturbation measurement. J Speech Hear Res 1996;39:126-34.
- Rovirosa A, Ascaso C, Abellana R, Martínez-Celdrán E, Ortega A, Velasco M, et al. Acoustic voice analysis in different phonetic contexts after larynx radiotherapy for T1 vocal cord carcinoma. Clin Transl Oncol 2008;10:168-74.
- Hanson DG, Jiang JJ, Chen J, Pauloski BR. Acoustic measurement of change in voice quality with treatment for chronic posterior laryngitis. Ann Otol Rhinol Laryngol 1997;106:279-85.
- Borow KM, Hessel SJ, Sloss LJ. Fistulous aneurysm of ductus arteriosus. Br Heart J 1981;45:467-70.
- Sengupta A, Dubey SP, Chaudhuri D, Sinha AK, Chakravarti P. Ortner's syndrome revisited. J Laryngol Otol 1998;112:377-9.
- Fan LL, Campbell DN, Clarke DR, Washington RL, Fix EJ, White CW. Paralyzed left vocal cord associated with ligation of patent ductus arteriosus. J Thorac Cardiovasc Surg 1989;98:611-3.
- Liang CD, Ko SF, Huang SC, Huang CF, Niu CK. Vocal cord paralysis after transcatheter coil embolization of patent ductus arteriosus. Am Heart J 2003;146:367-71.
- Zbar RI, Chen AH, Behrendt DM, Bell EF, Smith RJ. Incidence of vocal fold paralysis in infants undergoing ligation of patent ductus arteriosus. Ann Thorac Surg 1996;61:814-6.
- Hwang MS, Su WJ. Iatrogenic cardiovascular syndrome caused by transcatheter coil closure of patent ductus arteriosus. Acta Paediatr 2005;94:372-4.
- Ishimoto S, Ito K, Toyama M, Kawase I, Kondo K, Oshima K, et al. Vocal cord paralysis after surgery for thoracic aortic aneurysm. Chest 2002;121:1911-5.
- Murty GE, Smith MC. Recurrent laryngeal nerve palsy following heart-lung transplantation: three cases of vocal cord augmentation in the acute phase. J Laryngol Otol 1989;103:968-9.
- Tewari P, Aggarwal SK. Combined left-sided recurrent laryngeal and phrenic nerve palsy after coronary artery operation. Ann Thorac Surg 1996;61:1721-2.
- Jeffrey RR, Fabri BM, Fox MA. Left vocal cord paralysis after mobilisation of the internal mammary artery. Thorax 1988;43:941-2.
- Taha AS, Nakshabendi I, Russell RI. Vocal cord paralysis and oesophago-broncho-aortic fistula complicating foreign body-induced oesophageal perforation. Postgrad Med J 1992;68:277-8.
- Miglets AW, Adam JS. Vocal cord paralysis. Association with superior mediastinal widening secondary to tortuosity of the great vessels. Arch Otolaryngol 1982;108:112-3.
- Higgins MB, McCleary EA, Ide-Helvie DL, Carney AE.

- Speech and voice physiology of children who are hard of hearing. *Ear Hear* 2005;26:546-58.
- 26) Cohn JR, Sataloff RT, Branton C. Response of asthma-related voice dysfunction to allergen immunotherapy: a case report of confirmation by methacholine challenge. *J Voice* 2001;15:558-60.
- 27) Solomon NP, Garlitz SJ, Milbrath RL. Respiratory and laryngeal contributions to maximum phonation duration. *J Voice* 2000;14:331-40.
- 28) Wittmer VL, Simoes GM, Sogame LC, Vasquez EC. Effects of continuous positive airway pressure on pulmonary function and exercise tolerance in patients with congestive heart failure. *Chest* 2006;130:157-63.
- 29) Faggiano P, Lombardi C, Sorgato A, Ghizzoni G, Spedini C, Rusconi C. Pulmonary function tests in patients with congestive heart failure: effects of medical therapy. *Cardiology* 1993;83:30-5.
- 30) Choi YM, Oh JE, Kim SJ, Joo CU. Acoustic variations according to the correction in congenital heart diseases with left to right shunt. Program and abstract, the 59th Annual Fall Meeting of the Korean Pediatric Society; 2009 Oct 23-24; Seoul. Seoul: The Korean Pediatric Society, 2009:243.