

# 심한 호흡곤란을 동반한 역설성성대운동 1예

울산대학교 의과대학 서울아산병원 이비인후과학교실,<sup>1</sup> 호흡기내과학교실<sup>2</sup>

박준우<sup>1</sup> · 김지원<sup>1</sup> · 임채만<sup>2</sup> · 최승호<sup>1</sup>

= Abstract =

## A Case of Paradoxical Vocal Fold Movement with Severe Respiratory Distress

Jun Woo Park, MD<sup>1</sup>, Ji Won Kim, MD<sup>1</sup>, Chae-Man Lim, MD, PhD<sup>2</sup> and Seung-Ho Choi, MD, PhD<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Departments of Otolaryngology, <sup>2</sup>Pulmonology and Critical Medicine, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

Paradoxical vocal fold movement (PVFM) is characterized by aberrant vocal fold adduction. Although the exact pathogenesis is unknown, botulinum toxin injection, behavioral techniques, including speech therapy, bio-feedback, and cognitive-behavioral psychotherapy are considered for treatment of PVFM. The effectiveness of these treatments is not fully evaluated because of the rarity of disease. We present a case of 16-year-old female with sudden onset of respiratory distress associated with PVFM refractory to several treatments and spontaneously resolved later.

**KEY WORD** : Vocal fold · Movement disorder · Dyspnea.

### 서 론

역설성성대운동(PVFM, paradoxical vocal fold movement)은 흡기시 발생하는 성대의 발작적 내전을 특징으로 하는 임상적 증후군이다. 협착음(stridor) 및 호흡곤란을 주소로 내원하는 경우가 많으며, 천식으로 진단되어 장기간 불필요한 치료를 지속적으로 받는 경우가 많은 것으로 알려져 있다.

역설성성대운동은 1974년 Patterson 등에 의하여 최초로 보고되었으며,<sup>1)</sup> 국내에서는 아직까지 체계적인 보고나 치료 방법에 대한 논의가 이루어진 적은 없었다. 기질적, 심리적 여러 가지 원인이 제시되고 있으나 대부분의 경우는 이런 원인들이 복합적으로 작용할 것으로 생각되고 있다.<sup>2)</sup>

저자들은 역설성성대운동으로 진단하고 여러 가지 치료를 하였으나, 치료에 반응을 보이지 않다가 저절로 관해되는 경험을 하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증 례

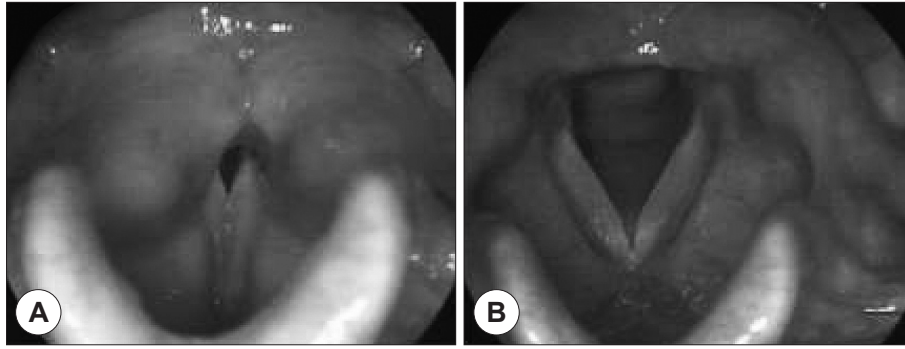
16세 여자 환자로 내원 3일전 새벽에 혼자 공부를 하던 도중 갑자기 호흡곤란이 발생하여 타원에 입원하였다. 호흡기 내과 입원하여 천식의 급성 악화 진단 하에 치료 하였으나 증상의 호전이 없어, 후두내시경검사를 시행하였고, 역설성성대운동 진단 하에 본원 전원되었다.

청진상에서 흉골상강(suprasternal area)에서 협착음이 청진되었으며, 발성을 할 때나 안정된 상태에서 천천히 숨을 쉴 때는 정상적인 성대 움직임을 보이나, 심호흡을 하거나 긴장하는 상황에서는, 흡기시 내전되는 성대를 관찰할 수 있었다(Fig. 1). 성대의 내전으로 인한 호흡곤란의 양상은 밤에 악화되며, 운동과의 관련성은 없었으며, 호흡곤란이 악화될 때에는 의식을 잃어버리는 경우도 종종 있었다.

환자는 총 3회의 입원치료를 반복하였다. 입원기간 동안 역설성성대운동 진단하 음성치료, 생체 피드백(bio-feedback)치료, 인지행동 치료 등을 시행하였다. 강세요법(accent method), quick sniff/slow blow technique을 이용한 음성 치료 시행되었으며, 시각적 피드백을 위해 환자에게 성대의 움직임을 자세히 보여주고 현재의 문제에 대하여 상세히 설명하였다. 그러나 이러한 치료 이후에도 간헐적인 호흡곤란악화는 계속되었다.

호흡기 내과와 협진 진행하여 천식과 동반되었을 가능성 배

논문접수일: 2015년 5월 12일  
심사완료일: 2015년 5월 17일  
책임저자: 최승호, 138-736 서울 송파구 올림픽로43길 88  
울산대학교 의과대학 서울아산병원 이비인후과학교실  
전화: (02) 3010-3750 · 전송: (02) 489-2773  
E-mail: shchoi@amc.seoul.kr



**Fig. 1.** Stroboscopy. A : Shows abnormal VC adduction during inspiration, and posterior glottal gap barely maintain airway. B: Shows normal VC movement in involuntary situation like cough.

제 하였으며, 부비동염이나 위-식도역류성질환(GERD, gastroesophageal reflux)과 같은 다른 기질적 원인의 가능성 배제 하였다. 자주 의식을 잃고 쓰러지는 증상에 대하여 심장내과 협진 의뢰하였으며, 심장효소 및 홀터 검사(holter test), 틸트 테스트(tilt test) 등을 시행하였으나 특이 소견은 없었다. 다른 신경학적 원인 배제 위하여 신경과 협진 의뢰하였으며, 시행한 뇌자기공명영상(MRI) 및 뇌전도(Electroencephalogram)에서 특이소견은 관찰되지 않았다. 정신심리적 평가 위하여 정신과 상담도 진행하였으며, 이전에는 밝혀지지 않았던 가족관계 및 학교생활에서의 스트레스가 있음을 알 수 있었고, 종합심리평가상, 전반적인 지능과 인지기능 및 사회지수는 평균수준이었다. 하지만, 가족관계 문제에 따른 분노감과 불안감, 우울감과 같은 복합적인 정서로 인해 불안정성과 동요를 경험하는 것으로 보인다라는 평가를 받은 후, lexapro, prozac, bupropion 등의 약물치료도 하였으나 증상 호전은 없었다.

일련의 검사 및 치료를 진행하는 과정에도 수 차례 기절 및 호흡곤란 호소하였으며, 이때마다 ambu bagging을 시행하면서 헬리옥스(heliox)를 적용하면, 수 분후 증상 호전을 보였다. 심한 호흡곤란이 반복되어 기관절개술을 권하였으나 환자와 보호자 미용적 문제로 수술보다는 보존적 치료를 원하여, 수술적 치료는 시행하지 않고 경과 관찰하였다. 하지만 지속적인 경과 관찰에도 증상 호전 없어서 입원 치료 한달 후, 양측 성대 보툴리눔 주입술(botox injection) 시행하였다. 보툴리눔 주입술은 국소 마취로 진행하였으며, 경운상 갑상막 주입술을 이용하여 양측 측운상피열근(lateral cricoarytenoid muscle)과 갑상피열근(thyroarytenoid muscle)에 주사하였다. 보툴리눔은 각 근육당 약 2.5 unit씩 주입하였다. 그러나 성대 보툴리눔 주입술 후에도 호흡곤란의 호전은 보이지 않았으며, 수술 다음날부터 흡인 증상이 나타났다. 이후 1개월 정도 입원 치료 계속하였으며, 환자는 점차 호흡곤란 빈도 감소하여 퇴원 후 외래에서 경과 관찰하기로 하였다.

하지만, 퇴원 한 달 후 다시 호흡곤란의 빈도가 늘어났고, 학교에서 심한 호흡곤란 증상 보여 타원에서 기관 삽관 후 본원

으로 전원되었다. 본원 입원 후에도 호흡곤란 악화 반복되는 양상으로 간헐적으로 헬리옥스 사용하며 경과 관찰하였다. 기관절개술 및 성대의전술 권유하였으나 환자 및 보호자 거부하여 보존적 치료만 하면서 경과 관찰하였으며, 3개월간 입원 치료 후 다시 호흡곤란 빈도 감소하는 양상으로 퇴원하였다.

환자는 두 번째 퇴원 이후에는 전혀 증상이 없다가 다시 퇴원 4개월후 호흡곤란 빈도 증가하여 본원 입원 치료하였으며, 마지막 입원 당시에도 수술적 치료 고려하였으나 보호자가 거부하여 진행하지는 못하였다. 환자는 간헐적인 헬리옥스 사용 외에 특이 치료없이 점차 호흡곤란 빈도 감소하여 퇴원하였고, 6개월 이상 호흡곤란 증상 없이 외래 통한 경과관찰 중이다.

## 고 찰

역설성 성대운동은 비교적 드물게 발생하는 질환으로써, 호흡곤란 및 흡기시 발생하는 천명음을 주소로 내원하는 경우가 많기 때문에 천식과 감별진단이 중요하다.<sup>3)</sup> 천식과의 감별점으로는 역설성성대운동은 취침시에 호전양상을 보이며, 흉골상강에서만 천명음이 관찰된다. 또, 천식유발검사에서 음성을 보이거나 천식의 치료에 반응하지 않는다면 역설성성대운동을 의심해 보아야 할 것이다. 문진상 다양한 성격장애나 정신과적 진단을 받은 경력이 많다는 보고도 있다.<sup>2)</sup> 하지만 후두경 검사를 시행하여 성대의 비정상적인 움직임을 확인하는 것이 가장 중요하며, 이를 위해 임상양상에 따른 의심이 가장 중요하다.

Patterson 등이 이 질환을 최초로 보고할 당시 이미 신경계통, 또는 정신과적질환이라고 파악하였으며,<sup>1)</sup> Altman 등의 보고에서는 10명의 역설성성대운동 환자 중에 7명이 정신과 질환 병력이 있었다고 한다.<sup>2)</sup> 본 증례에서도 저명한 정신과적 진단이나 검사상에서 특이소견은 없었으나 예민한 성격이었으며, 가족관계나 학업생활에 문제가 있어서 심한 스트레스를 받고 있는 상태였다. 이를 해결하기 위하여 정신과적 상담치료를 지속하였으며, 생체 되먹임 요법이나 음성치료, 정서적 지지치료

를 지속하였다. 이에 따른 치료효과를 판정하기 힘들지만 이런 신경정신과적 문제를 동반한 보고들이 많기 때문에 여기에 대한 면밀한 문진과 검사가 필요할 것이며, 이에 대한 적극적인 치료가 도움이 될 것이다.

한편, Maschka 등은 본 질환의 원인에 따른 임상 양상을 정리하였으며, 뇌간압박, 중증대뇌피질손상, 하부운동신경세포원손상, 운동질환 등 중추신경계의 기질적원인과 위-식도역류성질환, 궤병(malingering), 전환장애(conversion disorder)로 총 7가지로 분류하였다.<sup>4)</sup> 이렇게 신경계의 기질적 원인도 역설성성대운동의 원인이 될 수 있으므로, 이에 대한 배제가 필요하며, 본 증례에서도 신경과 진찰과 뇌 MRI를 시행하여 중추신경계의 기질적 원인을 배제하였다. Powell 등의 보고에 따르면 청소년기의 역설성성대운동 집단은 대부분 스트레스가 많은 여자였으며, 위-식도역류성질환과 연관되어 있다고 하였으며,<sup>5)</sup> Denyelle 등은 역설성성대운동을 진단받은 유아 9명중 8명에서 위-식도역류성질환을 관찰할 수 있었으며, 위-식도역류성질환이 해소된 이후에도 천명음은 지속되었다는 보고를 했다.<sup>6)</sup> 위산역류로 인한 성대점막의 자극으로 인한 성대의 과긴장 및 경련이 어느 정도 영향을 미칠 것으로 생각되며, 본 증례에서도 이러한 질환의 동반 가능성을 염두에 두고 PPI제제를 첫 번째 입원 기간 동안 투여하였다. 하지만 후두 내시경 및 위-식도내시경검사 상에서 위-식도역류성질환에 해당하는 특이소견은 관찰되지 않고, Reflux Finding score(RFS)에 해당하는 소견도 없었다. 위-식도역류성질환 의심할 만한 증상도 없어서 위-식도역류성질환에 의한 역설성성대운동이 아니라고 판단하여 약제사용을 중단하였다. 본 증례에서는 관련성이 확인되지 않았으나, 여러 보고들에서 위-식도역류성질환과의 연관성과 함께 PPI 제제와 생활 습관 개선으로 좋은 치료 효과를 보고하는 경우가 있어서 이에 대한 확인도 필요할 것이다.

상기와 같은 치료를 하여도 증상이 호전되지 않는 경우, 수술적 치료를 고려하게 되는데 가장 먼저 성대 보툴리눔 주입술을 고려할 수 있다. 여러 가지 원인으로 인해 발생한 성대근의 작용이상에 직접 영향을 주는 방법으로, 성대를 내전시키는 근육들이 목표가 된다. Blitzer 등은 12년동안 24명의 환자에게 보툴리눔 주사를 시행하였으며 20명에서 효과를 보았다. 하지만 시술에 따른 부작용으로 음성변화를 12명의 환자에서 호소하였으며, 12명 중 5명의 환자에서는 흡인을 호소 하었다고 하였다.<sup>7)</sup> 본 증례에서는 증상호전은 없었으며, 오히려 흡인을 호소였고, 흡인으로 인한 자극으로 호흡곤란의 악화 빈도가 늘어나는 것을 관찰할 수 있었다. 보툴리눔 주입술 이후 성대 외전으로 인한 흡인이 발생한 것으로 보아 보툴리눔이 성대 내전근에 영향을 미친 것으로 보인다. 하지만 간헐적인 호흡곤란은 지속되는 양상으로 질환의 기질적 심리적 원인의 복

합적 발생기전의 특성을 확인할 수 있었다. 종합해보면, 성대 보툴리눔 주사는 성대근의 작용이상에 도움이 될 수 있으나 영구적이지 못하며, 흡인과 같은 합병증이 생길 수 있으므로 주의 깊게 시행되어야 함을 알 수 있었다. 또한 심리적 원인이 큰 영향을 미치는 질환의 특성상 보툴리눔 주입술 만으로는 치료에 한계가 있음을 확인할 수 있다. 그 외에 다른 수술적 방법으로는 내전된 성대로 인한 기도폐쇄를 해소하기 위한 방법으로 성대외전술, 레이저성대절개술, 기관절개술 등을 고려할 수 있다. 하지만 여러 문헌에 따르면 기질적인 원인 없이 발생하는 경우 저절로 관해되는 경우도 보고 되고 있고,<sup>8)</sup> 본 증례에서도 결과적으로는 수술적 치료를 하지 않고, 현재 증상이 호전된 상태이다.

본 증례에서는 음성치료, 생체피드백 치료, 정서적 지지치료와 성대 보툴리눔주입술 및 약물치료가 시행되었으며, 명확한 반응을 보이는 치료는 없었던 것으로 보인다. 의식을 잃을 정도의 심한 호흡곤란 악화를 반복하면서 기관절개술 등 수술적 치료를 고려하였으나 결과적으로는 환자는 증상이 호전되어 현재는 특별한 치료 없이 일상 생활을 잘하고 있다.

결론적으로 역설성성대운동 환자는 친식과 감별하기 위한 임상적 의심이 중요하며, 여러 가지 기질적, 심리적 요인이 복합적으로 작용하므로, 환자 치료시 다학적인 접근이 필요하다. 본 증례에서와 같이 다양한 치료에 반응을 보이지 않은 역설성성대운동 질환은 증상이 심한 경우, 기관절개술과 같은 수술적 치료를 고려할 수도 있으나 수술에 따른 여러 가지 합병증 및 자연관해의 가능성을 고려하여 신중하게 결정되어야 할 것이다.

**중심 단어 :** 성대·운동장애·호흡곤란.

## REFERENCES

- 1) Patterson R, Schatz M, Horton M. *Munchausen's stridor: non-organic laryngeal obstruction. Clin Allergy* 1974;4(3):307-10.
- 2) Altman KW, Mirza N, Ruiz C, Sataloff RT. *Paradoxical vocal fold motion: Presentation and treatment options. J Voice* 2000;14(10):99-103.
- 3) Christopher KL, Wood RP, Eckert RC, Blager FB, Raney RA, Souhrada JF, et al. *Vocal-cord dysfunction presenting as asthma. N Engl J Med* 1983;308(26):1566-70.
- 4) Maschka DA, Bauman NM, McCray PB, Hoffman HT, Karnell MP, Smith RJ, et al. *A classification scheme for paradoxical vocal cord motion. Laryngoscope* 1997;107(11):1429-35.
- 5) Powell DM, Karanfilov BI, Beechler KB, Treole K, Trudeau MD, Forrest LA, et al. *Paradoxical vocal cord dysfunction in juveniles. Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2000;126(10):29-34.
- 6) Denoyelle F, Garabedian EN, Roger G, Tashjian G. *Laryngeal dyskinesia as a cause of stridor in infants. Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1996;122(6):612-6.
- 7) Blitzer A, Brin MF, Stewart CF. *Botulinum toxin management of spasmodic dysphonia (laryngeal dystonia): A 12-year experience in more than 900 patients. Laryngoscope* 1998;108(10):1435-41.
- 8) Doshi DR, Weinberger MM. *Long-term outcome of vocal cord dysfunction. Ann Allergy Asthma Immunol* 2006;96(6):794-9.