

인후두 역류질환으로 오인된 식도 이완불능증 1예

성균관대학교 의과대학 강북삼성병원 이비인후과학교실

노승호 · 이용우 · 박진수 · 이상혁

= Abstract =

A Case of Esophageal Achalasia Misconceived as Laryngopharyngeal Reflux Disease

*Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Kangbuk Samsung Hospital,
Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea*

Seung Ho Noh, Yong Woo Lee, Jin Su Park and Sang Hyuk Lee

Laryngopharyngeal reflux disease (LPRD) is common in laryngologic practice. In Korea, up to 1 out of every 5 patients who visit otorhinolaryngology clinic is supposed to have LPRD with symptoms and physical findings. Major symptoms of LPRD include hoarseness, cough, reflux symptom and mild dysphagia. Even though LPRD is common, its diagnosis may be difficult, because its symptoms are nonspecific and the laryngeal findings are not always associated with symptom severity. In Recent study, 66.4% of Patient who has LPRD also associated with esophageal motility disorders. Esophageal achalasia is a disease of unknown etiology characterized by an absence of peristalsis in the body of esophagus and nonrelaxing hypertension of the lower esophageal sphincter. Common cause is loss of ganglion cells in Auerbachs plexus. The classic triad of symptoms in achalasia includes dysphagia, regurgitation and weight loss. LPRD and esophageal achalasia have similar symptoms but have different treatment of choice. The Differentiation diagnosis of theses disease is important and should be established by history, radiologic examination and endoscopic examination. We recently assessed a 59-year-old female patient who complained of an epigastric pain, dysphagia and chronic cough. LPRD was initially diagnosed on Laryngoscopic examination and Reflux Symptom Index, but patient was not relieved of any symptoms after treatment of Proton Pump Inhibitor for 3 months. After high resolution manometry, esophageal achalasia was finally diagnosed. We report this case regarding the diagnosis and treatment with review of literatures because we have to think about esophageal motility disorders as a differential diagnosis in laryngology.

KEY WORDS : Esophageal achalasia · Laryngopharyngeal reflux disease · High resolution manometry · Esophagus · Diagnosis.

서 론

인후두 역류질환(Laryngopharyngeal reflux disease)은 이비인후과 영역에서 흔하게 진단되는 질환으로 국내의 보고에 따르면 이비인후과 외래 신환 5명 중 1명이 인후두 역류질환을 의심할 수 있는 증상이나 이학적 검사 소견을 보인다.¹⁾ 후두 이물감, 만성 기침, 애성 그리고 연하 곤란과 같은 비특이적

인 증상을 보이며²⁾ 진단에는 후두 내시경과 이에 기초한 역류 소견 점수(RFS : Reflux Finding Score), 역류 증상 점수(RSI : Reflux Symptom index)와 보행성 24시간 이중탐침 식도 산도 검사 등이 시행될 수 있다.³⁾ 치료 약물로 제산제 H2 수용체 차단제, 위장관 운동 촉진제, 양성자 펌프 억제제 등이 사용된다.⁴⁾

연하 곤란, 역류, 그리고 만성 기침 등의 증상으로 이비인후과를 찾은 환자에서 임상증상과 후두 내시경 소견으로 흔하게 인후두 역류질환을 진단하게 되지만, 경험적인 3개월간의 양성자 펌프 억제제 치료에도 반응하지 않을 경우 감별진단으로 후비루, 부비동염, 식도이완불능증 혹은 종괴성 병변 등 다른 요인에 의한 경우를 생각해보아야 한다.⁵⁾ 종괴성 병변 의한 요인을 배제하기 위해 경부 전산화단층촬영을 시행해 볼 수 있으며, 실제 인후두 역류가 유발되는 확인하기 위하여 보

논문투고일 : 2017년 1월 5일
논문심사일 : 2017년 2월 2일
게재확정일 : 2017년 3월 12일
책임저자 : 이상혁, 03181 서울 종로구 새문안로 29
성균관대학교 의과대학 강북삼성병원 이비인후과학교실
전화 : (02) 2001-2269 · 전송 : (02) 2001-2273
E-mail : entlsh@hanmail.net

행성 24시간 이중탐침 산도 검사, 또한, 식도 연동 운동 장애 질환군을 감별하기 위해 고해상도 식도 내압검사를 추가적으로 시행해볼 수 있다.

최근 위 식도 역류 질환에서 고해상도 식도 내압검사를 적용 하였을 때 66.4%의 환자에서 식도의 운동 장애가 확인 되었다는 보고가 있으며,⁶⁾ 또한 고해상도 식도 내압검사를 인후두 역류질환에 적용하였을 때 비폐쇄성 연하 장애 증상이 식도의 운동장애와 유의한 연관성을 보인다는 연구가 있었다.⁵⁾ 식도 연동운동 장애 질환군중의 하나인 식도 이완불능증은 자율신경계 손상으로 인하여 연하 시 하부식도 괄약근의 이완의 장애를 가져 오는 드문 질환이다.⁷⁾ 임상증상은 주로 연하 곤란이 약 90% 이상에서 나타나며 위식도 역류, 체중 감소 및 심와부 통증 등이 함께 동반될 수 있다. 인후두 역류질환과 식도 이완불능증의 병인과 그 치료는 상이하나 임상증상은 유사한 점이 많아서 그 감별 진단이 중요하다.⁸⁾ 저자들은 치료에 반응이 없는 인후두 역류질환 환자에서 시행한 보행성 24시간 이중탐침 산도 검사와 고해상도 식도 내압검사상 식도 이완불능증을 진단한 1례를 체험하였기에 문헌 고찰과 함께 보

고하는 바이다.

증 례

59세 여자가 6개월 전부터 발생한 연하 곤란, 역류 증상 그리고 경부 불편감과심와부 통증을 주소로 내원하였다. 간헐적인 심와부 통증과 흉부 통증으로 순환기 내과에 내원하여 시행한 심전도검사와 심초음파 검사는 모두 정상소견이었으며 가족력에서도 특이 사항은 없었다. 이학적 검사에서 경부 촉진 시 압통과 만져지는 종괴 소견은 없었고, 후두 내시경검사에서는 후두의 홍반, 후두 점막의 발적과 부종 소견과 함께 후두 내 진한 점액이 관찰되었다. 이외에 후연합부 점막비후, 성문하 부종, 육아종 혹은 육아조직 소견은 관찰되지 않았으며 후두 내시경 소견을 바탕으로 한 역류소견 점수(RFS)는 7점의 소견을 보였다(Fig. 1). 역류 증상 점수(RSI) 설문 조사에는 15 점의 소견을 보여 인후두 역류 질환을 의심 하에 경형적 양성자 펌프 억제제 치료를 3개월간 처방하였으며 식이 요법과 생활습관 개선을 교육 하였다.

환자는 3개월간의 치료 후에 일부 역류 증상은 개선을 보였으나 심와부 통증과 연하곤란 증상은 전혀 호전을 보이지 않았다. 이에 다른 원인을 감별하기 위해 경부 전산화단층촬영, 보행성 24시간 이중 전극 산도 검사와 고해상도 식도 내압 검사를 시행하였다. 경부 전산화단층촬영 소견상 경부에 특이한 이상 소견은 관찰 되지 않았으며 식도의 협착이나 구조적 이상 역시 관찰되지 않았다. 시행한 보행성 24시간 이중 전극 산도 검사에서 6가지 항목에 대하여 측정된 DeMeester Composite score는 Upright Time in Reflux 0점, Recumbent Time in Reflux 0.4점, Total Time In Reflux 0점, Episode over 5 min 0.3점, Longest Episode 0.2점, Total Episodes 0점을 합산하여 총점 0.8 점의 소견을 보였으며 정상범위인 14.7점미만을 만족하였다. 평균 식도 산도는 PH 6.7로 측정되었다(Table 1). 24시간동안 식도 전극이 PH4 이하로 떨어진 직후에 인두 전극이 1초 이상 PH4 이하로 감소되는 소견은 1회만 측정되었



Figure 1. Laryngoscopic examination shows laryngeal mucosal injection, mild erythema and diffuse laryngeal edema. Thick endolaryngeal mucus is also observed. Total Reflux Finding Score was 7.

Table 1. Acid reflux composite score analysis shows DeMeester composite score. DeMeester Composite score was 0.8. (normal range : <14.7). Upright Time in Reflux 0 score, Recumbent Time in Reflux 0.4 score, Total Time In Reflux 0 score, Episode over 5 min 0.3 score, Longest Episode 0.2 score, Total Episodes 0 score

Acid reflux composite score analysis (DeMeester) (pH)			
	Patient value	Patient score	Normal threshold
Upright time in reflux	0.0%	0.0	<8.4
Recumbent time in reflux	0.0%	0.4	<3.5
Total time in reflux	0.0%	0.0	<4.5
Episode over 5 min	0.0	0.3	<3.5
Longest episode	0.2 min	0.2	<19.8
Total episodes	1.1	0.0	<46.9
Composite score		0.8	<14.7

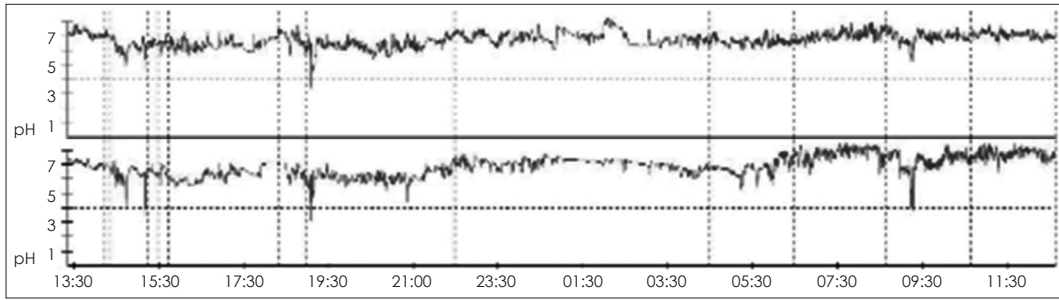


Figure 2. 24-hour dual-probe PH monitoring shows mean laryngeal PH 6.7 and satisfying when esophageal probe drop below PH 4, laryngeal probe also drop below PH 4 once within 24 hours. Correction for reflux episodes (PH drop below 4 at the proximal probe preceded by a pH drop at the distal probe) gave a smaller percentage of time 0.007% (0.1 min).

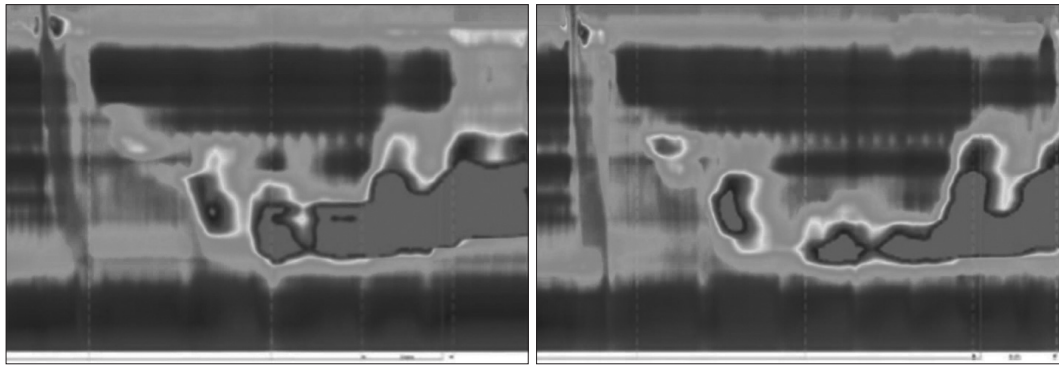


Figure 3. High resolution manometry shows extremely hypercontractile contraction (Mean distal contractile integral >8,000 mmHg-s-cm) in a patient with multi-peaked contraction. These findings are associated with repetitive prolonged contractions evoking the action of the jackhammer and achalasia.

고(Fig. 2), 환자의 증상과의 연관성은 보이지 않았다.

시행한 고해상도 식도 내압 검사상 하부 식도 수축 압력의 정상치는 43~152 mmHg이나 191.6 mmHg의 소견을 보이고 있었으며 평균 휴식기 식도 하부 괄약근 압력의 정상치는 15 mmHg이나 35.9 mmHg으로 하부 괄약근의 이완장애 소견을 보였다. 평균 원위부 수축 적분값(Mean distal contractile integral)의 정상치는 500~5,000 mmHg-sec-cm이나 8,914.9 mmHg-s-cm이었으며 6번의 수축중 2회의 수축에서 원위부 수축 적분값이 1,4731 mmHg-s-cm, 9,350.1 mmHg-s-cm로 측정되어 8,000 mmHg-sec-cm 보다 증가된 소견을 보였다. 원위 잠복기(Distal latency)는 정상치인 4.5 sec를 초과한 15.6 sec이 측정 되었다(Fig. 3). 이상의 고해상도 식도 내압 검사 소견으로 고압성 연동 운동 장애군인 식도 이완 불능증과 강직성 식도인 잭해머 식도가 진단되었다. 이에 저자들은 소화기 내과에 의뢰 하여 경구 내시경 근절개술을 시행하였다. 치료 3개월후 환자는 증상의 현저한 호전을 보이며 현재까지 합병증 없이 경과 관찰 중에 있다.

고 찰

인후두 역류질환은 이비인후과에 내원한 환자들에게서 흔

하게 진단되는 질환으로 이비인후과에 내원하는 전체 환자의 10%~30%가 위식도 역류와 연관된 증상을 호소한다는 보고가 있으며⁹⁾ 음성 및 후두 증상을 호소하는 환자 중에서는 절반 이상이 인후두 역류 질환과 관련이 있다.¹⁰⁾ 최근 수년간 인후두 역류질환의 진단이 지속적으로 증가하고 있으나 인후두 역류질환을 진단하는 객관적인 검사법은 아직까지 부재한 상황이며 여러 가지 장단점들이 있으며 이로 인하여 잘못된 진단을 내리게 될 수도 있다.^{9,10)} 인후두 역류질환의 진단을 위한 검사로는 후두 내시경 검사, 보행성 24시간 이중 탐침 산도 검사, 고해상도 식도 내압 검사등이 있다.³⁾ 또한 인후두 역류질환의 진단 기준은 아니지만 증상과 소견을 체계적으로 점수화기 위하여 후두 내시경 소견을 바탕으로 한 역류 소견 점수(RFS)와 역류 증상 점수(RSI)가 흔히 쓰이고 있다.¹¹⁾

역류 소견 점수(RFS)는 2001년 Belafsky 등¹²⁾에 의해 인후두 역류질환의 진단에 후두 내시경 소견의 일관성 부족을 보완하고 이학적 검사 소견과 질환의 심한 정도를 표준화된 척도를 이용하여 기록하고 점수화하기 위해 고안되었다.¹²⁾ 역류 소견 점수 RFS(Reflux Finding Score)는 성문하 부종(subglottic edema), 후두실 부종(ventricular edema), 후두 홍반(erythema), 성대 부종(vocal cord edema), 범 발성 후두부종(diffuse laryngeal edema), 후연합부 점막비후(hypertrophy of the

posterior commissure), 육아종 혹은 육아조직(granuloma or granulation tissue), 그리고 후두 내 진한 점액(thick endolaryngeal mucus)등 8개의 후두 내시경 소견을 바탕으로 한다.¹³⁾ 총점은 0점(양호)에서 26점(나쁨)까지 분포하며 역류 소견 점수(RFS) 점수가 7점 이상이면 95%의 정확성을 가지고 인후두 역류질환을 진단할 수 있다고 보고되어 있다.¹³⁾

역류 증상 지수(RSI)는 1) 쇠목소리가 난다, 2) 목청을 가다듬는다, 3) 후비루가 있다, 4) 음식을 삼키기 어렵다, 5) 식사 후나 누으면 기침이 나온다, 6) 숨쉬기 힘들거나 사래가 든다, 7) 성가시거나 문제가 되는 기침이 난다, 8) 목구멍에 이물감을 느낀다, 9) 가슴이 쓰러거나 아프거나 소화가 안되거나 위산이 넘어오는 것을 느낀다, 9가지 항목에 대하여 설문형식으로 0점(무증상)에서 5점(심한증상)으로 답할 수 있으며 총점은 0점(양호)에서 45점(나쁨)까지 분포한다.¹⁶⁾ 총점이 13점 이상일 경우 95%의 정확성으로 인후두 역류 질환을 진단할 수 있으며¹⁰⁾ 본 증례에서 환자는 역류 소견 점수(RFS)는 7점, 역류 증상 지수(RSI)설문조사에서 15점의 소견을 보였다. 상기 소견을 통하여 본 증례에서는 인후두 역류질환을 의심하고 3개월간의 경험적 양성자 펌프 억제제 치료와 생활 습관 개선 및 식이요법개선을 시행하였다. 하지만, 지속적인 치료에도 불구하고 역류 증상과 기침 증상은 일부 호전을 보였으나 연하 곤란 및 심와부 통증은 전혀 개선을 보이지 않았다. 이에 저자들은 다른 질환을 감별하기 위하여 경부 전산화단층촬영, 보행성 24시간 식도 산도 검사와 고해상도 식도 내압 검사를 시행하였다.

보행성 24시간 식도 산도 검사는 위식도 역류 질환의 진단에 가장 예민하고(80%) 특이한(90%) 검사법이며 아울러 위식도 역류를 객관적으로 정량할 수 있는 방법으로 알려져 있다.³⁾ 보행성 24시간 식도 산도 검사에서 식도 역류를 가장 정확하게 진단할 수 있는 기준 지표로는 DeMeester 점수(DeMeester composite score)가 있다.¹³⁾ 본 증례 환자에서는 1) Upright Time in Reflux 0점, 2) Recumbent Time in Reflux 0.4점, 3) Total Time In Reflux 0점, 4) Episode over 5 min 0.3점, 5) Longest Episode 0.2점, 6) Total Episodes 0점을 합한 총점 0.8점으로 14.7점 미만으로 역류성 질환은 감별 진단에서 배제 될 수 있었다.

본 증례에서 고해상도 식도 내압 검사에서 하부 식도 수축 압력의 정상치는 43~152 mmHg이나 191.6 mmHg의 소견을 보이고 평균 휴식기 식도 하부 괄약근 압력의 정상치는 15 mmHg이나 35.9 mmHg으로 하부 괄약근의 이완장애 소견을 보였다. 원위부 수축 적분값(Mean distal contractile integral)의 정상치는 500~5,000 mmHg-sec-cm²이나 8,914 mmHg-s-cm이 측정되었으며 적어도 한번 이상의 수축에서 8,000

mmHg-s-cm를 초과하는 1,4731 mmHg-s-cm이 측정되는 소견을 보였다. 이 환자는 상기 소견에 의하여 최종적으로 식도 이완불능증과 강직성 식도 질환인 잭해머 식도가 진단되었다. 환자는 소화기 내과에 의뢰되어 경구 내시경 근절개술을 통해 증상의 호전을 보였으며 3개월 후 합병증 없이 경과 관찰 중에 있다.

식도 이완불능증은 하부식도 괄약근의 이완 장애와 식도 체부의 연하운동 부전을 특징으로 하는 식도 운동질환으로 그 발병 원인이 아직 밝혀지지 않았으나 병리조직학적으로 장근 신경총의 신경절 세포의 변성이 병인에 관여하는 것으로 생각되고 있다.⁷⁾ 그 치료로서 변성된 신경절 세포의 회복을 가져오는 근본적인 방법은 알려진 바 없고 기능적 폐쇄를 초래하는 하부식도를 물리적으로 넓혀주는 고식적 방법이 시행되고 있다.¹⁴⁾ 임상 증상으로는 주로 연하 곤란이 약 90% 이상에서 나타나며 위식도 역류, 체중 감소 및 흉골하동통 등이 있다.¹⁴⁾

식도 이완불능증 중 주로 연하 곤란과 심와부 통증을 유발하며 그 병태생리학적 기전은 아직 명확히 밝혀진바가 없다. 과도한 식도 수축은 식도 근육 세포의 과잉 증식이나 과잉 흥분과 연관이 있으며 과도한 식도 수축을 보이는 환자에서 정상보다 두꺼운 식도 근육층이 관찰 되는 것이 특징이다. 강직성 식도 질환인 잭해머식도는 연하 시 과도한 수축과 관련 있는 식도-위 접합부위의 폐쇄와 연관이 있으며 이런 강직성 식도 장애의 치료는 내과적, 내시경적 치료에서 74%의 치료 실패율을 보이고 있다. 최근 여러 연구에서 잭해머 식도의 치료로 경구 내시경 근절개술의 치료적 효과가 성공적인 것으로 보고 되어있다.¹⁵⁾

저자들은 경부 불편감, 연하 곤란, 역류 증상, 만성 기침 등 일반적인 인후두 역류질환의 증상으로 내원한 환자에서 초기에 인후두 역류질환 진단 하에 3개월간의 고식적인 치료 후 전혀 반응을 보이지 않아서, 감별진단을 위하여 시행한 보행성 24시간 이중 전극 산도 검사와 고해상도 식도 내압 검사를 통하여 식도 이완 불능증과 잭해머 식도를 최종적으로 진단할 수 있었다. 본 증례와 같이 인후두 역류질환이 의심되는 환자에서 고식적인 치료에 반응을 보이지 않는 경우에는 자세한 병력 청취와 임상 증상의 경과에 대한 구체적인 문진이 중요하며, 또한, 다른 원인을 감별하기 위하여 추가 검사를 시행하여 정확한 진단과 그에 맞는 적절한 치료를 시행하는 것이 중요하기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심 단어 : 식도 이완불능증·인후두 역류질환·고해상도 식도 내압검사·식도·진단.

REFERENCES

- 1) Belafsky PC, Postma GN, Amin MR, Koufman JA. *Symptoms and findings of laryngopharyngeal reflux. Ear, Nose & Throat Journal* 2002;81(9):10.
- 2) Choi H. *Laryngopharyngeal reflux disease. The 2nd digestive disease research lecture. Korea University Digestive Research Institute* 1999:25-32.
- 3) Remacle M, Lawson G. *Diagnosis and management of laryngopharyngeal reflux disease. Current Opinion in Otolaryngology & Head and Neck Surgery* 2006;14(3):143-9.
- 4) Simpson CB. *Management of laryngopharyngeal reflux disease. Current Opinion in Otolaryngology & Head and Neck Surgery* 1999; 7(6):343.
- 5) Roman S, Tutuian R. *Esophageal hypertensive peristaltic disorders. Neurogastroenterology & Motility* 2012;24(s1):32-9.
- 6) Carroll TL, Fedore LW, Aldahlawi MM. *pH Impedance and high-resolution manometry in laryngopharyngeal reflux disease high-dose proton pump inhibitor failures. The Laryngoscope* 2012;122(11): 2473-81.
- 7) Reynolds J, Parkman H. *Achalasia. Gastroenterology Clinics of North America* 1989;18(2):223-55.
- 8) Kessing BF, Bredenoord AJ, Smout AJ. *Erroneous diagnosis of gastroesophageal reflux disease in achalasia. Clinical Gastroenterology and Hepatology* 2011;9(12):1020-4.
- 9) Lee SH, Huh SH. *Recent trends of laryngopharyngeal reflux disease. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54(8):519-25.
- 10) Vaezi MF. *Therapy insight: gastroesophageal reflux disease and laryngopharyngeal reflux. Nature Clinical Practice Gastroenterology & Hepatology* 2005;2(12):595-603.
- 11) Habermann W, Schmid C, Neumann K, DeVaney T, Hammer HF. *Reflux symptom index and reflux finding score in otolaryngologic practice. Journal of Voice* 2012;26(3):e123-7.
- 12) Belafsky PC, Postma GN, Koufman JA. *The validity and reliability of the reflux finding score (RFS). The Laryngoscope* 2001;111(8): 1313-7.
- 13) Johnson LF, DeMeester TR. *Development of the 24-hour intraesophageal pH monitoring composite scoring system. Journal of Clinical Gastroenterology* 1986;8:52-8.
- 14) Moawad FJ, Wong RK. *Modern management of achalasia. Current opinion in gastroenterology* 2010;26(4):384-8.
- 15) Ko WJ, Lee BM, Park WY, Kim JN, Cho J-H, Lee TH, et al. *Jackhammer esophagus treated by a peroral endoscopic myotomy. The Korean Journal of Gastroenterology* 2014;64(6):370-4.