

재발성 천음과 호흡곤란을 보이는 10세 여자에서 진단된 성대 기능 이상 1예

정윤미,¹ 김가은,² 박미르,¹ 김수연,¹ 김종덕,¹ 김민정,¹ 이용주,¹ 정재화,³ 김다희,⁴ 이미정,⁵ 김윤희,¹ 김경원,¹ 손명현¹

¹연세대학교 의과대학 세브란스 어린이병원 소아청소년과, ²계명대학교 동산의료원 소아청소년과, ³경희대학교 경희의료원 소아청소년과, ⁴연세대학교 의과대학 이비인후과학교실, ⁵연세대학교 의과대학 세브란스병원 영상의학과

A case of vocal cord dysfunction diagnosed in a 10-year-old girl with recurrent wheezing and dyspnea

Yoon Mi Jeong,¹ Ga Eun Kim,² Mireu Park,¹ Soo Yeon Kim,¹ Jong Deok Kim,¹ Min Jung Kim,¹ Yong Ju Lee,¹ Jae Hwa Jung,³ Da Hee Kim,⁴ Mi-Jung Lee,⁵ Yoon Hee Kim,¹ Kyung Won Kim,¹ Myung Hyun Sohn¹

¹Department of Pediatrics, Severance Children's Hospital, Yonsei University College of Medicine, Seoul; ²Department of Pediatrics, Keimyung University Dongsan Medical Center, Daegu; ³Department of Pediatrics, Kyung Hee University Medical Center, Kyung Hee University College of Medicine, Seoul; ⁴Department of Otorhinolaryngology, Yonsei University College of Medicine, Seoul; ⁵Department of Radiology and Research Institute of Radiological Science, Severance Hospital, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Vocal cord dysfunction is one of the causes of dyspnea and is characterized by paradoxical closure of the vocal cords. The paradoxical movement of the vocal cords produces the limitation of airflow, resulting dyspnea, chest tightening, hoarseness, stridor, or wheezing. These findings are similar to those of other upper airway obstruction diseases or asthma; therefore, a high index of suspicion and clear differential diagnosis are required. Here, we discuss a case of vocal cord dysfunction aged 10 years that presented recurrent wheezing and dyspnea. The abnormal movement of the vocal cords was observed by fiberoptic laryngotracheobronchoscopy, which was correlated with stridor during respiration. Repeated episodic symptoms were controlled by the multidisciplinary team approach; however, surgical treatment was needed to stabilize the symptom. (*Allergy Asthma Respir Dis* 2023;11:100-104)

Keywords: Vocal cord dysfunction, Wheezing, Dyspnea, Adolescent

서론

성대 기능 이상(vocal cord dysfunction)은 호흡곤란을 일으키는 원인 중 하나로 성대의 비정상적인 닫힘(paradoxical closure)을 특징으로 한다.¹ 흡기 시에 발생하는 비정상적인 성대의 내전은 후두 부위에서의 기류 제한을 유발함으로써 숨참, 가슴 답답함, 신 목소리, 천명음 등의 증상이 나타나게 된다.² 성대 기능 이상의 진단은 반복적인 증상을 보이는 환자에서 후두경을 통해 흡기 또는 흡기와 호기 시에 성대의 비정상적인 닫힘을 확인하여 이루어진다.^{1,3,4}

성인에서는 호흡곤란에 대한 응급한 치료가 필요한 환자의 약 2.5%~22%에서 성대 기능 이상이 그 원인으로 다양하게 보고되며, 소아 및 청소년의 경우 천식으로 인한 입원 환자의 약 14%에서 성

대 기능 이상이 보고되었다.^{3,5-7} 이는 호흡곤란 등의 증상이 천식과 유사하며, 질환 자체에 대한 낮은 친숙함 때문에 진단 및 접근이 늦어지는 경우가 많기 때문이다. 또한 천식으로 오진되어 치료를 지속하였으나 치료에 반응이 없어 성대 기능 이상의 진단이 지연되는 경우도 흔하다.⁴ 성대 기능 이상은 급성 호흡곤란을 유발할 수 있으며, 초기에 적절한 진단이 이루어지지 않으면 환자에게 불필요한 약물이 투여되거나 때로는 호흡 부전을 초래할 수 있기 때문에 정확한 진단이 필요하다.

저자는 급성호흡곤란을 주소로 내원한 소아 환자에서 성대 기능 이상을 진단하고 다학제 치료에도 증상이 반복되어 수술적 치료를 진행한 환자 1예를 경험하여 이를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

Correspondence to: Jae Hwa Jung  <https://orcid.org/0000-0001-7443-9073>
Department of Pediatrics, Kyung Hee University College of Medicine, 23 Kungheedaero, Dongdaemun-gu, Seoul 02447, Korea
Tel: +82-2-958-8306, Fax: +82-2-958-8306, Email: Jung627b@gmail.com
Received: October 25, 2022 Revised: December 15, 2022 Accepted: December 15, 2022

© 2023 The Korean Academy of Pediatric Allergy and Respiratory Disease
The Korean Academy of Asthma, Allergy and Clinical Immunology
This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>).

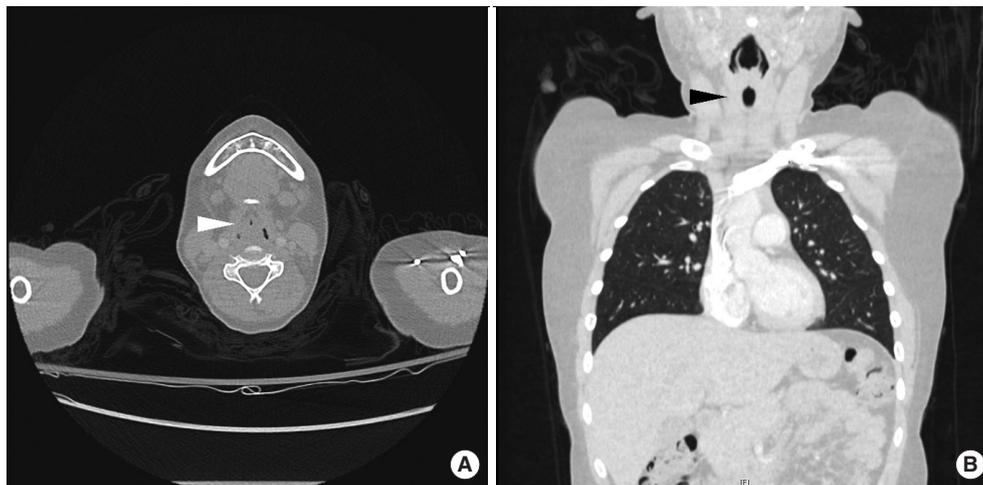


Fig. 1. Contrast enhanced computed tomography (CT) was performed to evaluate anatomical abnormality of the airway, the narrowing of upper airway at vocal cords level was observed. Otherwise, there was no focal lesion in both lungs, trachea and bronchi in this CT. (A) Axial view of the CT image, the airway was significantly narrowed (white arrowhead). (B) Correlated thin space between vocal cords (black arrowhead) was observed in coronal view of the CT image.

증례

특이 병력이 없는 10세 여아가 갑자기 발생한 호흡곤란을 주소로 응급실에 내원하였다.

발열, 콧물, 가래 등의 상부호흡기감염 증상은 보이지 않았으나 호흡곤란, 천명음과 목 불편감을 호소하였다. 그 외 다른 신경계 증상이나 소화기계, 비뇨기계 증상은 없었다. 내원 당시 활력징후는 혈압 110/72 mmHg, 체온 36.5도, 분당 맥박 수 111회, 분당 호흡 수 20회, 산소포화도 100%로 안정적이었다.

문진에서 내원 10개월 전과 5개월 전 동일한 양상의 호흡곤란이 두 차례 발생하였다가 소실된 과거력이 있었고, 신체 진찰에서 안정 시 양 폐야에서 천명음이 청진되며 흉골상절흔(suprasternal notch)의 퇴축을 보였다. 수포음 또는 심잡음은 없었으며, 피부발진이나 림프절 종대는 보이지 않았다.

혈액검사에서 백혈구 $10,080/\text{mm}^3$ (중성구 83.1%, 림프구 13.3%, 호산구 0.8%), 혈색소 13.2 g/dL, 혈소판 $394,000/\text{mm}^3$ 정상범위로 확인되었다. 생화학검사에서 특이 소견 보이지 않았고, 적혈구 침강 속도와 C-반응단백질 정상 수치이며 임의노 검사도 단백뇨, 혈뇨 등 이상 소견 보이지 않았다. 14종 호흡기바이러스검사를 시행하였고 특이 바이러스는 검출되지 않았다.

흉부 및 목 엑스선 촬영에서 특이 소견 보이지 않았고, 응급실에서 시행한 후두경에서도 명확한 구조적 이상은 발견되지 않았다. 초기 안정화를 위해 비강 캐놀라를 통한 산소 투여 및 속효성 베타 2-항진제 및 스테로이드 흡입, 전신 스테로이드를 정맥주사로 투여하였으나 증상 호전 없이 지속되어 흉부 전산화 단층촬영을 진행하였다.

흉부 전산화 단층촬영 소견은 후두개와 기도의 좁아짐이 의심

되고 양쪽 폐실질과, 기관 및 기관지에 이상 소견은 보이지 않았다 (Fig. 1). 상기도 폐쇄에 대한 정밀한 기도 평가를 위해 응급 경직기관지내시경을 계획하였다. 경직기관지내시경을 위한 전신 마취 직후 환자의 천명음은 소실되었으며, 검사 소견은 양측 피열연골(arythenoid cartilage)을 포함한 주요 기도 구조물의 비후 또는 협착은 보이지 않았다.

환자 증상과 기도 및 성대 움직임의 연관성을 평가하기 위해 비수면 광섬유 후두기관지경검사(fiberoptic laryngotracheobronchoscopy)를 시행하였고, 양측 성대의 움직임이 대칭적이나 흡기 시 성대가 50% 이상 닫히는 비정상적인 움직임 소견이 확인되었다(Fig. 2).⁸ 호흡곤란과 천명음이 흡기 시 성대가 닫히는 비정상적인 움직임과 상관관계가 있음을 확인하고 성대 기능 이상으로 진단하였다.

고유량 비강 캐놀라를 통해 산소를 공급하며 호흡운동치료와 음성치료를 시행 후 증상 호전되어 입원 4일째 퇴원하였으나, 퇴원 2일 후 호흡곤란이 재발하여 재입원하였다. 성대 기능 이상의 악화 요인 감별을 위해 위식도역류질환과 후비루증후군 및 불안장애 검사를 시행하였고 특이 이상 소견이 없음을 확인하였다.⁹

추적 관찰을 위해 시행한 폐기능검사에서 상기도 폐쇄 지표인 FEF₅₀ (forced expiratory flow at 50%)/FIF₅₀ (forced inspiratory flow at 50%) 값은 증상 호전 시에 0.9, 호흡곤란의 악화 시에 1.7로 상승 소견을 보였다. 유량-용량 곡선(flow-volume loop)에서 흡기 시 기류 제한 소견을 보여 성대 기능 이상에 의한 기도의 좁아짐이 환자의 증상을 유발하는 원인임을 확인하였다(Fig. 3).^{10,11}

성대 기능 이상에 의한 급성호흡곤란 및 천명음의 재발을 예방하기 위해 소아청소년과, 이비인후과, 소아정신과의 다학제 진료를 시행하며 음성치료와 호흡운동치료를 병행하였으나 10개월의 기

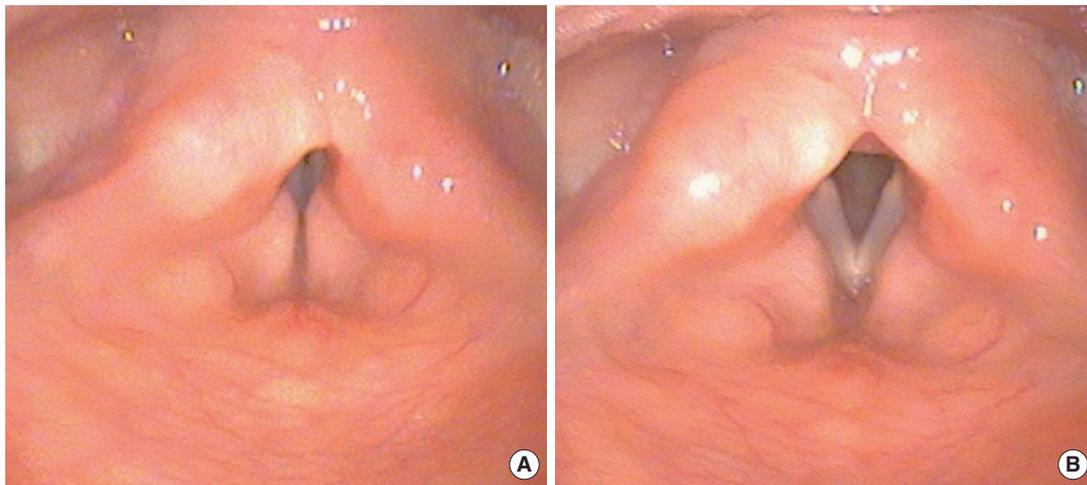


Fig. 2. Fiberoptic laryngotracheobronchoscopy (FOB) reveals the paradoxical movement of vocal cords which were adducted during inspiration. (A) The vocal cords were inappropriately closed during inspiration resulting in wheezing. (B) During expiration both vocal cords were fully abducted resulting in normalized finding of dynamic airway inspection.

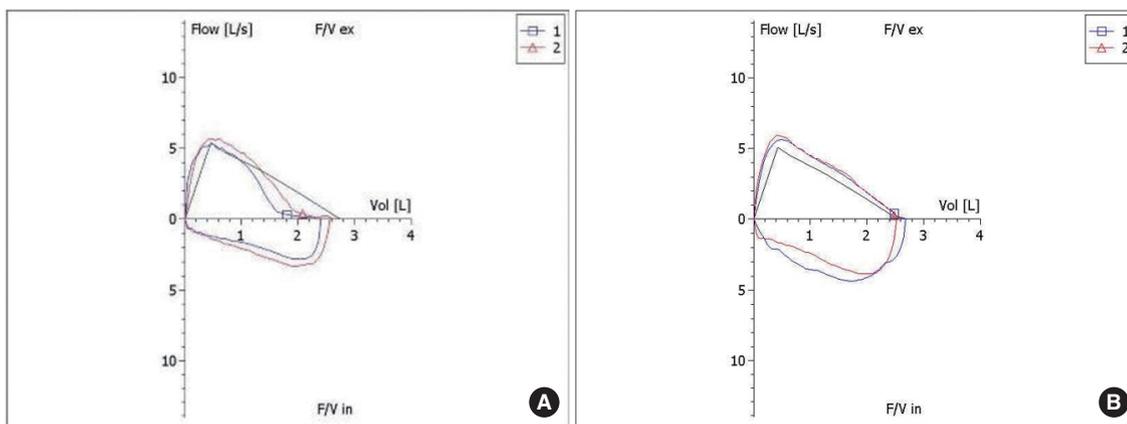


Fig. 3. Pulmonary function test was performed. (A) When the symptoms including dyspnea and stridor were suffering the patient, the flattening of inspiration loop was markedly observed. However, (B) the symptoms were relieved, the loop shape was changed in normal. F/V ex, flow/volume expiration; F/V in, flow/volume inspiration.

간 동안 9번의 입원치료가 반복되어 진단 후 23개월 시점에 성대후방절개술(posterior cordotomy)을 시행하였다. 성대후방절개술 이후 일시적으로 증상이 호전되었으나 4개월 뒤 호흡곤란 재발과 후두경 검사에서 이상 소견을 보였다. 환자는 반복 증상에 대하여 추가로 성대의측화술(vocal cord lateralization)을 시행하였고 이후 증상의 재발 없이 유지되어 추적 관찰 중에 있다.

고 찰

성대 기능 이상은 성대의 비정상적인 닫힘(paradoxical closure)을 특징으로 하며 이로 인한 기류 제한으로 호흡곤란 및 천명음 등의 증상을 일으킨다. 반복적인 천명 증상으로 천식 또는 급성상기도폐쇄로 오인되어 흡입기 또는 전신 스테로이드 치료를 시행하는

경우가 흔하다.⁴ 또한 성대 기능 이상과 천식이 동반 이환되는 경우도 24%–42%로 보고되어 정확한 진단과 감별 진단이 중요하다.^{5,12}

성대 기능 이상은 기관지확장제에 반응을 보이지 않으며 기관지 유발검사에서도 음성 소견을 보이지만 증상의 유사성으로 인해 천식과 감별 진단이 어려운 경우가 흔하게 보고된다.¹³ 천식 환자의 폐기능검사에서는 폐쇄성 기류 제한을 보이나, 성대 기능 이상 환자에서 흡기 시 유량용량곡선의 편평화를 보이는 것에 차이가 있다.^{1,13,14} 상기도 폐쇄의 지표로 사용되는 FEF_{50}/FIF_{50} 의 경우 정상인에서는 1.0 미만을 보이나 성대 기능 이상 환자에서는 노력흡기유속(FIF_{50})의 감소에 의해 1.0 이상의 값을 보인다.^{10,11} 1초간 노력성 호기량(forced expiratory volume in 1 second, FEV_1)과 최대호기량(peak expiratory flow, PEF)의 비율로 정의되는 Empey index (FEV_1/PEF)도 상기도폐쇄의 정도를 반영한다.¹⁰ 이 환자에서 시행한 폐기능검

사에서 급성증상 시 흡기 유량용량 곡선의 편평화가 나타나고 FEF₅₀/FIF₅₀의 비가 1.0 이상을 보이거나 증상 호전 시 0.9까지 감소하였다.¹⁵

확진을 위해서는 후두경이나 후두기관지경시경을 통해 흡기 시 또는 흡기와 호기 시 모두 성대의 비정상적인 단함을 확인하는 것이 가장 중요하다. 이 증례에서 첫 후두경검사에서는 후두부의 육안적인 이상 소견은 보이지 않았으나 비수면 광섬유 후두기관지경지경검사 및 성대 기능 이상으로 진단된 이후 증상 재발 시에 시행한 후속 기관지경검사에서 흡기 시의 비정상적 성대 단함을 확인할 수 있었다. 이는 검사 시 구조적 이상뿐만 아니라 호흡에 따른 기능적 이상에 대해서도 주시하여야 함을 시사한다. 즉 성대를 포함한 후두 및 기관, 기관지를 평가하는 다양한 검사에서 구조적 이상뿐만 아니라 기능적 이상 소견을 확인하는 것이 중요하다. 또한 전신 마취 하에 시행한 검사에서 천명음의 소실은 기도질환에서 동적 기도 운동 이상의 확인이 중요함을 보여준다. 소아의 특수성과 협조의 어려움으로 인해 진정과 마취를 동반하여 검사를 시행하는 경우가 많다. 따라서 성대 기능 이상과 같은 기도의 동적 상태 평가에 있어 유의가 필요하다. 이 증례 및 고찰을 통해 성대 기능 이상의 초기 진단을 위해 기능적 이상을 의심하고 동적 상태 평가를 고려한 진찰 및 검사를 진행하는 것이 중요함을 알 수 있다.

성대 기능 이상 외에도 후두 운동 장애를 동반할 수 있는 질환 또는 유발 요인을 확인해야 한다. 신체화 장애, 전환 장애, 불안 장애 등 여러 정신과적인 요인에 의해 성대 기능 이상을 보이는 경우가 있어 정신과적 평가가 필요할 수 있다.⁸ 운동 유발 성대 기능 이상 (exercise-induced laryngeal obstruction)은 운동 시에만 발생하는 호흡곤란을 주소로 하며 운동 유발 천식과 증상이 유사하나 천식 치료에 더딘 경과를 보임을 특징으로 한다.¹⁶ 호흡곤란 및 천명 증상이 언제 주로 발생하는지 자세한 문진과 신체 진찰이 감별 진단에 중요하다. 그 외에도 외부 또는 내부 자극 요인에 의해 성대 기능 이상이 유발될 수 있다. 화학 물질 또는 냄새, 위식도역류질환, 드물게 비염 등의 상기도질환과 후비루증후군이 이에 해당하는 것으로 보고되고 있다.⁸ 성대 기능 이상이 아닌 후두 운동 장애를 유발할 수 있는 질환에는 후두연화증과 같은 성문 상부질환과 기관 삼관 지속으로 인한 후두 연축, 성대 부전이 있으며 아나필락시스 역시 급성 호흡곤란 증상을 보이는 점에서 감별이 필요할 수 있다. 두경부암 또는 흉부 및 갑상선 수술에 의해 후두 신경 손상 시 성대 마비가 발생할 수 있으며 이로 인한 후두 운동 장애로 성대 기능 이상과 유사한 증상을 보일 수 있다. 그 외에도 뇌간 압박에 의한 뇌신경 마비 또는 운동 장애 감별을 위한 신경학적인 평가가 필요하다.⁸

이 증례의 환자 역시 후두 운동 장애를 유발할 수 있는 질환을 확인하기 위해 기술한 검사 외에 알레르기 반응검사, 위식도역류검사, 뇌 자기공명영상 등을 시행하였다. 검사 결과는 모두 정상 소견으로 확인되어 환자의 증상은 구조적, 기질적 원인이 아닌 호흡과

성대 움직임 간의 역동적인 기능 장애인 성대 기능 이상으로 확인되었다.

성대 기능 이상의 치료에 가장 중요한 점은 환자의 질병에 대한 이해와 순응이다. 환자는 진단 당시 만 10세로 호흡 교육 및 언어 치료가 가능하나 치료의 중요성 및 증상의 발생 기전에 대한 이해 정도는 낮게 평가되었다. 호흡 시 성대의 위치를 환자가 인식할 수 있도록 비디오 피드백을 사용하면 도움이 될 수 있다.¹⁷ 환자는 증상 조절 및 관리를 위해 부모교육을 통해 가정에서 호흡 훈련을 지속하고 이비인후과, 소아정신과, 소아신경과, 언어 치료 등 다학제적 진료를 시행하였다.

기존의 보고에 따르면 운동 유발성 성대 기능 이상의 경우 속효성 항콜린제를 운동 전 흡입하였을 때 증상에 효과가 있으며, 운동 유발 없이 발생하는 성대 기능 이상의 경우에도 대부분 언어 치료만으로도 장기적인 합병증 없이 자연 소실되는 것으로 알려져 있다.¹⁸ 그러나 음성 치료, 스트레스 상담 및 성대 보톡스 주사 등의 치료에도 반복되는 급성호흡곤란으로 기관절제술을 시행한 사례 역시 보고되었다.^{19,20} 이 증례에서도 지속적인 다학제 치료에도 불구하고 증상의 재발로 수술적 치료가 필요하였다.

이 증례는 소아에서 성대 기능 이상을 진단하고 보존적인 치료에 반응하지 않아 수술적 치료를 통해 치료한 증례로서 의의를 지닌다. 또한 성대 기능 이상의 진단에 기도의 역동적인 평가를 위해 진정하지 않은 후두경검사 및 광섬유 후두기관지경검사가 중요하고, 연속적인 폐기능검사를 통해 성대의 비정상적인 움직임에 의한 기도 폐쇄 정도를 평가할 수 있음을 보여주었다. 성대 기능 이상의 진단 이후 보존적인 다학제적인 접근을 통해 증상 호전을 계획하고, 일차 치료에도 지속되는 성대의 비정상적인 움직임과 증상으로 수술적 방법을 통해 치료한 소아 성대 기능 이상 1예를 보고하는 바이다.

REFERENCES

- Landwehr LP, Wood RP, Blager FB, Milgrom H. Vocal cord dysfunction mimicking exercise-induced bronchospasm in adolescents. *Pediatrics* 1996;98:971-4.
- George S, Suresh S. Vocal cord dysfunction: analysis of 27 cases and updated review of pathophysiology & management. *Int Arch Otorhinolaryngol* 2019;23:125-30.
- Kenn K, Hess MM. Vocal cord dysfunction: an important differential diagnosis of bronchial asthma. *Dtsch Arztebl Int* 2008;105:699-704.
- Newman KB, Mason UG 3rd, Schmalzing KB. Clinical features of vocal cord dysfunction. *Am J Respir Crit Care Med* 1995;152(4 Pt 1):1382-6.
- Lee JH, An J, Won HK, Kang Y, Kwon HS, Kim TB, et al. Prevalence and impact of comorbid laryngeal dysfunction in asthma: a systematic review and meta-analysis. *J Allergy Clin Immunol* 2020;145:1165-73.
- Truong A, Truong DT. Vocal cord dysfunction: an updated review. *Otolaryngology* 2011;2:S1-002.
- Petrov AA. Vocal cord dysfunction: the spectrum across the ages. *Immu-*

- nol Allergy Clin North Am 2019;39:547-60.
8. Morris MJ, Christopher KL. Diagnostic criteria for the classification of vocal cord dysfunction. *Chest* 2010;138:1213-23.
 9. Dunn NM, Katial RK, Hoyte FC. Vocal cord dysfunction: a review. *Asthma res and pract* 2015;1:1-8.
 10. Empey D. Assessment of upper airways obstruction. *Br Med J* 1972;3:503-5.
 11. Rotman HH, Liss HP, Weg JG. Diagnosis of upper airway obstruction by pulmonary function testing. *Chest* 1975;68:796-9.
 12. Julie SY, Davis AC, Pietsch K, Walsh JM, Scriven KA, Mock J, et al. Demographic Differences in Clinical Presentation of Pediatric Paradoxical Vocal Fold Motion (PVFM). *J Voice* 2021 Oct 9:S0892-1997(21)00295-2. doi: 10.1016/j.jvoice.2021.08.017. [Epub].
 13. Lee J, Denton E, Hoy R, Tay TR, Bondarenko J, Hore-Lacy F, et al. Paradoxical vocal fold motion in difficult asthma is associated with dysfunctional breathing and preserved lung function. *J Allergy Clin Immunol Pract* 2020;8:2256-62.
 14. Weinberger M, Doshi D. Vocal cord dysfunction: a functional cause of respiratory distress. *Breathe (Sheff)* 2017;13:15-21.
 15. Brake MK, Anderson J. Bilateral vocal fold immobility: a 13 year review of etiologies, management and the utility of the Empey index. *J Otolaryngol Head Neck Surg* 2015;44:27.
 16. Shay EO, Sayad E, Milstein CF. Exercise-induced laryngeal obstruction (EILO) in children and young adults: From referral to diagnosis. *Laryngoscope* 2020;130:E400-6.
 17. Mahoney J, Hew M, Vertigan A, Oates J. Treatment effectiveness for vocal cord dysfunction in adults and adolescents: a systematic review. *Clin Exp Allergy* 2022;52:387-404.
 18. Doshi DR, Weinberger MM. Long-term outcome of vocal cord dysfunction. *Ann Allergy Asthma Immunol* 2006;96:794-9.
 19. Goldstein R, Bright J, Jones S, Niven R. Severe vocal cord dysfunction resistant to all current therapeutic interventions. *Respir Med* 2007;101:857-8.
 20. Baxter M, Ruane L, Phyland D, Leahy E, Heke E, Lau KK, et al. Multidisciplinary team clinic for vocal cord dysfunction directs therapy and significantly reduces healthcare utilization. *Respirology* 2019;24:758-64.