미용적 양악수술 시행 후 발생한 연하장애 1례

임연희 · 손수아 · 박성준 · 박영학

가톨릭대학교 의과대학 여의도성모병원 이비인후-두경부외과학교실

A Case of Severe Dysphagia after Aesthetic Two-Jaw Surgery

Yeon Hee Im, M.D., Soo Ah Son, M.D., Sung Joon Park, M.D., Young Hak Park, M.D., Ph.D.

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Yeouido St. Mary's Hospital, College of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

This study reports a case who presented with swallowing difficulty after orthognathic surgery. A female patient, who had undergone orthognathic surgery for esthetic purpose, presented with dysphagia. Administration of botulinum toxin injection to the cricopharyngeus muscle did not relieve or improve the severe dysphagia. The patient required nasogastric tube feeding for about three months. Swallowing ability was recovered after daily rehabilitation therapy and prescribing pyridostigmine. Injuries to the suprahyoid muscles (involved in laryngeal elevation during the pharyngeal phase of swallowing) during orthognathic surgery, and the inadvertent dissemination of inadequately injected botulinum toxin to adjacent muscles, are possible mechanisms of the severe dysphagia experienced by this patient. The authors also reviewed literature on the prevention and management of dysphagia following the orthognathic surgery. (JKDS 2021;11:67-71)

Keywords: Botulinum toxins, Dysphagia, Modified barium swallowing study, Orthognathic surgery, Pyridostigmine

서론

양악수술 후에 발생할 수 있는 흔한 합병증으로는 감염, 턱 관절 장애, 비강 구조 변형, 신경 손상, 치아 손상 등이 있으며 수술 후에 발생하여 지속되는 연하장애는 드물게 보고되었다^{1,2}. 양악수술 후에 비위관식이 필요할 정도의 연하장애가 발생한 경우는 영어권 학술지에서 오직 4 증례만 보고된 바 있다³⁻⁵. 그러나 이 증례들에서도 양악수술 후에

일시적으로만 비위관식이 필요하였으며 연하재활치료 또는 수술적 치료 후, 또는 자발적으로 모든 환자에서 3개월 이내에 연하장애가 호전되어 비위관을 제거할 수 있었다고 보고하고 있다.

본 연구의 저자들은 미용적 목적으로 Le Fort I 골절단술과 하악골 상행지 시상분할 골절단술(bilateral sagittal splint ramus osteotomy, BSSRO) 및 이부성형술(genio-plasty)을 같이 시행한 후 3개월 동안 비위관식을 필요로

투고일: 2020년 11월 3일, 심사일: 2020년 11월 9일, 게재확정일: 2020년 11월 30일
 책임저자 : 박성준, 서울시 영등포구 63로 10
 (07345) 가톨릭대학교 의과대학 여의도성모병원 이비인후-두경부외과학교실
 Tel: 02) 3779-1611, Fax: 02) 786-1149
 E-mail: hypocratism@gmail.com
 책임저자 : 박영학, 서울시 영등포구 63로 10
 (07345) 가톨릭대학교 의과대학 여의도성모병원 이비인후-두경부외과학교실
 Tel: 02) 3779-1054, Fax: 02) 786-1149
 E-mail: yhpark7@catholic.ac.kr

Copyrights © The Korean Dysphagia Society, 2021.

했던, 기존의 연구에서는 보고된 적 없는 증례를 경험하여 보고하고자 한다. 아울러 양악수술 후 발생할 수 있는 연하 장애의 원인과 예방 및 치료에 대하여 문헌 검색을 통한 고찰을 함께 보고하고자 한다.

증례

23세 여자환자가 미용적 목적으로 Le Fort I 골절단술을 병용한 BSSRO와 이부성형술을 타병원에서 시행 받았으며, 수술 후부터 경구 일반식 식이 시 음식이 잘 안 삼켜지며 연하 시 반복되는 흡인으로 기침이 발생하였다. 이에 수술 후 2주째 방문한 타병원에서 비위관으로 영양을 공급하기 시작하였으며, 해당 병원에 입원하여 시행한 비디오투시연하검사(videofluoroscopic swallowing study, VFSS)에서 상부식도괄약근 이완 기능이 저하되고 이상와에 저류된 식괴가 인두 연하기 이후에 기도로 흡인되는 소견(post-pharyngeal swallow aspiration)이 확인되었다. 수술 후 3주째에 상부식도괄약근 풍선 확장술을 시행한 후 VFSS를 재 확인하였으나 기도로 흡인되는 소견은 호전되지 않았으며 이에 경부 근육 강화 운동을 추가로 시행하였다. 수술 후 5주째에 확인한 VFSS에서도 상부식도괄약근 이완 기능은 호전되지 않아 상부식도괄약근 풍선 확장술을 1주 동안 3회 추가로 시행하였으나, 수술 후 6주째에 시행한 VFSS에서도 호전되지 않았다. 이에 수술 후 7주째에 윤상인두근을 목표로 위내시경을 이용하여 양측 이상와에 보툴리눔 독소를 50 U씩 각각 주입하였다. 보툴리눔 독소 주입 후에 환자는 발성장애를 추가로 호소하였으며, 이에 시행한 후두내시경에서 우측 성대 마비 소견이 확인되어 가교 히알루론산(큐젤®, BNC Korea, Daegu, Korea) 0.2 cc를 이용한 성대주입술을 시행 후 목소리는 호전되었다. 그러나 여전히 연하기능은 개선되지 않아 양악수술 및 이부성형술 시행 후 8주째에 비위관식을 유지한 채로 본원으로 진료 의뢰되었다.

었다.

본원 내원 당시 굴곡후두경 검사에서 우측 성대 마비 및 양측 이상와에 다량의 타액이 고여있는 소견이 보였다.(Fig. 1) 경부 측면 단순촬영에서는 골 불유합, 플레이트나 스クリ의 이탈 등의 소견은 보이지 않았으며, 구강, 인두, 후두 내의 연부조직 음영에서도 연하장애를 유발할 만한 이상 소견은 관찰되지 않았다.(Fig. 2) 본원에서 시행한 변형된바륨 삼킴검사(modified barium swallowing study, MBS)에서 혀 움직임, 설근부의 후방운동, 후두의 거상, 상부식도괄약근 이완 기능이 모두 저하된 소견을 보였으며, 성문부까지의 식도 침투 소견은 보였으나 명확한 흡인은 관찰되지 않았다.(Fig. 3) 이에 혀 움직임, 설근부와 인두의 접촉, 그리고 인두의 수축을 강화하고자 노력 연하(effortful swal-

Fig. 2. Lateral neck radiography on post-operative week 8th. There are no specific findings on bony structure, such as bone nonunion, and plate or screw dislocation. Also there are no findings of soft tissue abnormalities that could cause dysphagia in the oral cavity, pharynx, and larynx.

Fig. 1. Fiberoptic laryngoscope on post-operative week 8th. Right vocal cord paralysis with paramedian position were seen, and no definite glottis gap was observed during phonation. Also much amount of salivary pooling in both pyriform sinuses was seen.

low)와 마사코 수기(Masako maneuver)를 시행하였다. 또한 후두 거상 및 상부식도괄약근 이완 기능을 강화하기 위해 멘델슨 수기(Mendelson maneuver)와 두부거상운동(Shaker's exercise)을 연화재활치료의 목적으로 함께 시행하였다. 그럼에도 불구하고 환자의 연하곤란이 지속되는 소견을 보여 기존에 타병원에서 주입한 보툴리눔 독소의 효과를 상쇄하기 위해, 보툴리눔 독소 주입술을 시행한지 4주 후부터 가역성 아세틸콜린 분해효소 억제제인 피리도스티그민(pyridostigmine, 60 mg)을 비위관으로 하루 세 번씩 매일 투여하기 시작하였다^{6,7}. 피리도스티그민 투여 시작일로부터 열흘 경과 후 환자는 주관적인 연하기능의 회복을 보였으며, 투약 12일 후, 즉 수술 후 12주째이자 보툴리눔 독소 주입술 시행 후 5주째에 시행한 MBS에서 후두 거상,

상부식도괄약근 이완 기능은 호전되었으나 설근부 후방운동은 여전히 저하된 소견을 보였다. 그러나 MBS에서 침투 및 흡인 소견은 관찰되지 않아 비위관을 제거하고 구강을 통한 연식 식이를 시작하였다. 이후부터는 흡인 없이 식사가 가능하여 수술 후 13주째에 정상적으로 일반식 식이를 하면서 퇴원하였으며 피리도스티그민은 퇴원 2주 후까지 복용하였다. 추적관찰 위해 수술 후 16주째에 내원하여 시행한 MBS에서 설근부 후방운동 기능까지 완벽하게 호전된 소견을 보였으며, (Fig. 4) 수술 후 18주째에 시행한 외래 추적관찰에서 환자는 주관적인 연하장애가 없으며 모든 형태의 음식을 정상적으로 구강식이 가능한 것을 확인하였다.

Fig. 3. Modified barium study on post-operative week 8th. (A) No abnormal finding is seen in resting state. (B) During swallowing, tongue base retraction and larynx elevation are decreased. (C) Upper esophageal opening is reduced. After swallowing, residue in tongue base and pyriform sinus are seen.

Fig. 4. Modified barium study on post-operative week 13th. (A) No abnormal finding is seen in resting state. (B) Tongue base retraction, larynx elevation, and upper esophageal opening was improved. (C) After swallowing there is little residue.

고찰

양악수술 후에 비위관 식이가 필요할 정도의 연하장애가 발생한 증례는 영어권 학술지에서 4례만 보고되었으며, 각 증례의 환자들은 수술 직후에는 심한 연하장애를 호소하였으나 윤상인두근 절개술, 연하재활치료, 정신적 지지요법 등의 치료 후 3개월 이내에 증상이 호전되었다³⁻⁵. 본 연구의 저자들이 경험한 환자의 경우에도 양악수술을 시행한 후 비위관 식이가 요구될 정도의 연하장애가 발생하였다. 이에 연하재활치료 및 이상와 보툴리눔 독소 주입술을 시행하였지만 3개월 동안이나 연하장애가 지속되었다는 점에서 이전의 증례들과 차이를 보인다.

본 증례에서 환자가 양악수술 후 3개월 동안 연하장애를 보인 원인으로 두 가지 가능성을 생각해 볼 수 있다. 첫 번째로 MBS에서 후두의 거상 및 상부식도괄약근 이완이 저하된 소견을 바탕으로 수술 과정에서 후두 거상에 관여하는 근육이 손상되었을 가능성을 고려할 수 있다. 상부식도괄약근 이완이 일어나기 위해서는 괄약근 수축을 유지시켜주는 신경전달물질의 분비가 중단되어야 함과 동시에 후두도 전상방으로 거상되어야 하기 때문이다^{8,9}. 수술 시 골절단술을 시행하고 미니플레이트와 스크류로 상악과 하악을 고정하는데 고정에 사용된 장치가 일부 움직여지면서 주변 근육의 과신장으로 인한 손상이 발생할 수 있으며^{5,10}, 본 증례의 환자의 경우 후두 거상에 관여하는 설골상근, 인두 근육 등이 손상되었을 가능성이 있다⁹⁻¹¹. 두 번째로 윤상인두근 내 보툴리눔 독소 주입술 시행 시 주입된 약물이 주변의 다른 근육들에 잘못 주입되었거나 확산되어 연하장애가 더욱 오래 지속되었을 가능성이 있다^{9,12}. 윤상인두근 내 보툴리눔 독소의 일반적 주입방법은 국소마취하에 근전도나 CT를 이용하거나 전신마취하에 내시경을 이용하여 시행하는 방법들이 소개되고 있으며¹³⁻¹⁵, 합병증을 예방하기 위해서는 고농도의 보툴리눔 독소를 정확한 위치에 주입하여 다른 곳으로 확산되는 것을 방지해야 한다. 본 환자의 경우 국소마취 하에 위내시경을 이용하여 이상와를 통하여 보툴리눔 독소를 주입하였다고 하며, 굴곡내시경을 통해 윤상인두근 내 보툴리눔 독소 주입술을 시행한 증례가 보고된 바는 있으나 시술의 정확도나 효과 및 부작용 등에 대해 통계적으로 밝혀지지 않은 상태이다¹⁶. 따라서 본 환자의 경우 주입된 약물이 주변 근육에까지 작용하였을 가능성을 배제할 수 없으며 보툴리눔 독소 주입술 후 새롭게 발생한 우측 성대 마비 소견은 약물이 후두 내재근까지 확산되었을 가능성을 뒷받침한다고 볼 수 있다. 본 환자에서는 일측성 성대 마비 소견을 보였지만, 이상와를 통해 양측 후윤상피열근 등으로 약

물이 주입될 경우 양측성 성대마비로 인한 기도 폐쇄까지 발생할 수 있으며, 만약 환자에게 보툴리눔 독소 주입술을 시행하지 않았다면 양악수술 후 발생한 연하장애의 이전 증례들처럼 3개월 이내에 증상이 호전되었을 가능성이 있다는 것을 바탕으로, 보툴리눔 독소 주입술을 시행할 때 방법 및 정확도에 더욱 주의를 기울여야 함을 알 수 있다. 결론적으로 본 저자들은 양악 수술 시 후두 거상에 관여하는 근육의 손상과 보툴리눔 독소의 부정확한 주입을 3개월간 지속된 연하장애의 가능한 원인으로 제시하고자 한다.

이와 같은 추정 하에 본 증례의 환자의 연하장애를 다음과 같이 치료하였다. 먼저 하악골절단술 및 이부성형술 시행 시 잠재적으로 발생 가능하였을 연하근육들의 손상을 고려하여, 후두 거상, 설근부의 후방 운동, 및 상부식도괄약근 이완 기능을 강화할 수 있는 다양한 연하재활치료를 시행하였다. 두번째로 부정확하게 주입된 보툴리눔 독소의 약물 효과를 역전시키기 위해서 피리도스티그민을 투여하였다. 피리도스티그민은 아세틸콜린 분해효소 억제제로 본래 중증 근무력증의 치료제로 사용되는 약제이며, 이외에도 비탈분극성 신경근육 접합부 봉쇄 약물의 효과를 역전시키기 위해서 투여되기도 한다^{6,7}. Young은 연축성 발성장애로 후두근육에 보툴리눔 독소 주입술을 시행한 후에 호흡곤란, 연하장애, 발성장애 등의 부작용이 발생한 20명의 환자에게 치료의 목적으로 피리도스티그민을 투여하였으며 20명의 환자 모두에서 심각한 합병증 없이 증상들이 호전되었다고 보고하였다⁷. 이에 본 증례의 환자에게도 보툴리눔 독소의 약물 효과를 역전시키기 위한 목적으로 피리도스티그민을 4주간 투여하였으며 구역감, 설사, 빈뇨, 복통, 저혈압, 알레르기 반응 등 피리도스티그민 투여로 생길 수 있는 부작용 발생 없이 환자의 연하장애가 호전되는 결과를 얻을 수 있었다. 결론적으로 연하에 관여하는 근육의 기능을 강화하는 연하재활치료와 보툴리눔 독소 주입의 의도하지 않은 효과를 상쇄할 수 있는 피리도스티그민 투여를 통해 연하장애가 호전되었을 것으로 추정해 볼 수 있다.

양악수술 후 심한 연하장애가 발생하는 경우는 드물지만 한번 발생하게 되면 일상생활에 지장을 초래할 뿐 아니라 흡인성 폐렴, 영양실조 등의 합병증을 유발할 수도 있다. 따라서 양악수술을 시행할 때 술자들이 연하기능에 관여하는 구조물들이 손상되지 않도록 주의를 기울여 예방하는 것이 매우 중요하다. 수술 후에 불가피하게 연하장애가 발생할 경우, 빠르고 정확한 진단을 위해 신경학적 검사와 함께 VFSS나 MBS와 같은 객관적인 연하기능 평가가 이루어져야 하며, 검사에서 발견된 원인에 대한 적절한 치료가 시행되어야 한다. 연하근육 손상이 의심되는 경우 연하근육들을

강화하는 재활운동이 도움이 될 것이며, 연하재활운동만으로 효과가 제한적인 경우에는 풍선 확장술, 보툴리눔 독소 주입술, 또는 윤상인두근 절개술과 같은 치료를 적절히 병행하는 것을 고려해야 하겠다. 그러나 아직 많은 증례들을 바탕으로 명확한 원인을 분석한 연구가 부족하며, 적절한 치료방법의 표준화가 이루어져 있지 않아 추후 이와 관련된 체계적인 추가 연구가 필요하다.

ACKNOWLEDGEMENTS

본 연구는 증례 보고로, 연구비 수혜, 물질적 지원 등의 재정적 이해관계는 없었습니다.

REFERENCES

1. Friscia M, Sbordone C, Petrocelli M, Vaira LA, Attanasi F, Cassandro FM, et al. Complications after orthognathic surgery: our experience on 423 cases. *Oral Maxillofac Surg.* 2017;21(2):171-7.
2. Iannetti G, Fadda TM, Riccardi E, Mitro V, Filiaci F. Our experience in complications of orthognathic surgery: a retrospective study on 3236 patients. *Eur Rev Med Pharmacol Sci.* 2013;17(3):379-84.
3. Gaukroger MC. Dysphagia following bimaxillary osteotomy. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 1993;31(3):189-90.
4. Nagler RM, Peled M, Laufer D. Prolonged dysphagia after orthognathic surgery: report of a case and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 1996;54(4):523-5.
5. Salmon BA, Dawlaty A, Van Sickels JE. Dysphagia Requiring Nasogastric Feeding Following Orthognathic Surgery: An Unusual Complication, Case Report, Literature Review, and Recommendations. *J Oral Maxillofac Surg.* 2019;77(3):601-6.
6. Maggi L, Mantegazza R. Treatment of myasthenia gravis: focus on pyridostigmine. *Clin Drug Investig.* 2011;31(10):691-701.
7. Young DL, Halstead LA. Pyridostigmine for reversal of severe sequelae from botulinum toxin injection. *J Voice.* 2014;28(6):830-4.
8. Cook IJ, Dodds WJ, Dantas RO, Massey B, Kern MK, Lang IM, et al. Opening mechanisms of the human upper esophageal sphincter. *Am J Physiol.* 1989;257(5 Pt 1):G748-59.
9. Matsuo K, Palmer JB. Anatomy and physiology of feeding and swallowing: normal and abnormal. *Phys Med Rehabil Clin N Am.* 2008;19(4):691-707, vii.
10. Ohba S, Kawasaki T, Hashimoto M, Yoshida N, Ashina I. A Patient With Aspiration Pneumonia After Mandibular Osteotomy With Genioplasty. *J Craniofac Surg.* 2016;27(4):e356-8.
11. Pearson WG, Jr., Langmore SE, Yu LB, Zumwalt AC. Structural analysis of muscles elevating the hyolaryngeal complex. *Dysphagia.* 2012;27(4):445-51.
12. Donner MW, Bosma JF, Robertson DL. Anatomy and physiology of the pharynx. *Gastrointest Radiol.* 1985;10(3):196-212.
13. Blitzer A, Brin MF. Use of botulinum toxin for diagnosis and management of cricopharyngeal achalasia. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1997;116(3):328-30.
14. Atkinson SI, Rees J. Botulinum toxin for cricopharyngeal dysphagia: case reports of CT-guided injection. *J Otolaryngol.* 1997;26(4):273-6.
15. Ahsan SF, Meleca RJ, Dworkin JP. Botulinum toxin injection of the cricopharyngeus muscle for the treatment of dysphagia. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;122(5):691-5.
16. Brant CQ, Siqueira ES, Ferrari AP Jr. Botulinum toxin for oropharyngeal dysphagia: case report of flexible endoscope-guided injection. *Dis Esophagus.* 1999;12(1):68-73.