인두 협착에 대한 경구강 비디오 후두경 수술 치료 2예

곽장욱 · 이윤세

울산의대 서울아산병원 이비인후과학교실

Transoral Videolaryngoscopic Surgery for Pharyngeal Stenosis: Two Case Studies

Jangwook Gwak, M.D., Yoon Se Lee, M.D., Ph.D.

Department of Otolaryngology Head and Neck Surgery, Asan Medical Center, University of Ulsan College of Medicine, Seoul, Korea

Pharyngeal stenosis (PS) is an unwanted consequence of chemo-radiation treatment of pharyngeal carcinomas, or a rare complication of rheumatic diseases. We present two cases of PS treated with the novel use of transoral videolaryngoscopic surgery (TOVS). In the first case, a 63-year-old male presented with dysphagia due to PS after adjuvant chemo-radiation therapy. Laryngoscopy revealed fibrotic bands obstructing both pyriform sinuses. Impaired swallowing reflex and weak pharyngeal muscle during the pharyngeal phase were identified in VFSS. To secure the oropharyngeal space, the fibrotic band was removed using a monopolar cautery with TOVS. The second case involved a 49-year-old female afflicted with IgG4-related rheumatic disease who presented with dysphagia. A pharyngeal stricture between the epiglottis and adjacent lateral pharyngeal wall was accountable for stenosis of the oropharynx. Adhesiolysis around the pharyngeal aperture was performed during TOVS. In both cases, steroid was injected into the resection site to prevent subsequent adhesions. Both patients resumed oral intake of a soft meal the day after surgery, and eventually progressed to regular meals. Stable pharyngeal function was demonstrated after 2 months. No major complications from the surgery were observed in both cases. We propose that TOVS is a feasible surgical option to resolve and prevent PS, and the application of TOVS can potentially be expanded for oropharyngeal lesions. (JKDS 2021;11:137-142)

Keywords: Chemoradiation therapy, IgG4-related disease, Pharyngeal stenosis, Transoral videolaryngoscopic surgery

서론

식도-인두 협착(pharyngeal stenosis, PS)의 원인으로 두경부암에 대한항암방사선 치료와 자가면역질환으로 인한 섬유화가 있다. 구인두 및 하인두, 경부 식도에 발생하는

반흔과 이로 인한 상부 호흡소화관의 협착은 연하곤란을 일으키며 이로 인해 환자의 삶의 질을 떨어뜨리는 결과를 낳는다¹. 인두 및 후두 두경부암에 대한 치료가 점차 기능 보존적인 방향에 초점을 맞추면서 이들의 주 치료로 항암방사선치료와 같은 비 수술적 방법을 적용하려는 시도도 지속적

투고일: 2021년 5월 14일, 심사일: 2021년 5월 14일, 게재확정일: 2021년 6월 9일
책임저자 : 이윤세, 서울시 송파구 올림픽로 43길 88
(05505) 울산의대 서울아산병원 이비인후과학교실
Tel: 02) 3010-5885, Fax: 02) 489-2773
E-mail: manseilee@gmail.com

Copyrights © The Korean Dysphagia Society, 2021.

으로 늘고 있으며², 따라서 항암방사선 치료에 속발하는 합병증과 이에 대한 대처에 대한 관심 또한 늘고 있다.

상부 호흡소화관에 발생하는 협착의 원인으로는 수술과 항암방사선치료와 같은 주요 원인 이외에도 전신적인 자가 면역질환도 관여할 수 있다. Immuno-globulin G4 연관질환(IgG4-related disease, IgG4-RD)은 침범 당한 기관의 만성적인 염증 및 섬유화를 일으키는 질환으로서, 기관의 비대 및 조직의 섬유화, 혈청 IgG4의 증가, IgG4 양성 형질 세포의 조직 내 침윤을 특징으로 하는 질환이다^{3,4}. 주로 췌장, 신장, 간담도와 같은 기관을 침범하며, 두경부에서는 침샘과 안구, 갑상선이 주요 병소로 확인되나⁵, 드물게 인두, 후두, 발데이어 편도환(Waldeyer's ring)에서의 섬유증이 나 위종양의 형태로 확인되기도 한다⁶⁻⁸.

발생한 인두 및 식도부의 협착증에 대한 치료로 현재는 확장술이나 스텐트와 같은 고식적인 접근부터 협착의 정도가 심한 경우 피판술 혹은 위장전인술과 같은 개방 수술까지 시도될 수 있다⁹. 수술 범위가 커질수록 부가적인 합병증이 발생할 가능성이 크기 때문에 비침습적인 치료를 통해 기관보존을 우선 시행할 수 있다. 경구강 비디오 수술(transoral videolaryngoscopic surgery; TOVS)을 통한 비침습적인 치료는 구인두, 하인두, 후두의 병변을 제거하는데 사용되고 있다⁹. 본 증례에서는 이러한 방법을 응용하여 각각 항암방사선 치료의 과거력 및 IgG4-RD이 원인으로 고려되는 인두 협착 2예에서 성공적으로 경구강 비디오 수술을 시행하고 증상이 호전되었기에 본 증례를 통해 이를 보고하고자 한다.

증례

1. 증례 1

63세 남성으로 내원 18년 전부터 발생하여 점진적으로 진행되는 연하곤란을 주소로 내원하였다. 내원 30년 전 타원에서 후두암을 진단받고 수술적 치료 및 항암방사선 치료를 받았던 과거력이 있던 분으로, 당시 수술 기록 및 항암방사선 치료 과정에 대한 기록은 확인이 어려웠다. 치료 이전 일반 식이 가능하던 분으로, 치료 이후에도 10년 간 일반 식이 가능하였으나 그 이후부터 연하곤란이 시작되었으며, 내원 당시의 연식 식이까지 가능하나 일반 식이는 어려운 상태였다. 외래 내원 당시 시행한 경성 후두내시경에서 양측 설근부에서 시작되어 인두 후벽까지 이어지는 덮개 형태의 연조직이 확인되었다.(Fig. 1A) 점막과 섬유조직으로 이루어진 띠 형태로 좌측이 더 심한 소견을 보였으며, 이로 인한 구인두 협착을 유발하고 후두개곡 및 이상와의 관찰을 어렵게 하였다. 본원에서 촬영한 경부 전산화단층촬영 상에서는 좌측에 더 심하게 나타나는 구인두벽의 비대와 인두 공간의 협착 소견이 확인되었다. 비디오 투시 연하 검사(videofluoroscopic swallowing study; VFSS)를 통해 인두기의 인두부전증, 후두개 닫힘의 저하, 인두 수축근의 약화로 인한 음식물의 인두 내 저류 소견이 확인되었다. 이에 항암방사선 치료에 속발한 인두 협착증 진단 하 경구강 비디오 수술(TOVS)을 계획하였다.

전신 마취 하 구인두 및 하인두에 접근하기 용이하도록 환자를 Boyce-Jackson 자세를 취하도록 하고 FK-WO

Fig. 1. Pharyngeal stenosis caused by concurrent chemoradiation therapy. (A) Initial finding. (B) Preoperative finding before the first operation. (C) Postoperative finding after the first operation. (D) Current finding.

retractor를 이용하여 수술 부위를 노출시켰다.(Fig. 1B) 술자는 환자의 머리 위에 위치하고, 수술 보조자는 HD 카메라가 부착된 경성 후두 내시경을 수술 부위에 비추고 유지하였다. 구인두 및 하인두의 협착을 유발하는 섬유 점막 조직이 확인되었으며, 비디오 시야에서 충분한 절제연을 확보한 상태에서 단극 전기소작기를 이용하여 양측 이상과가 노출될 수 있도록 인두 후벽과 접하는 부분을 절제하였다.(Fig. 1C) 환자는 수술 1일 뒤 합병증 없이 퇴원 진행하였고 이후 연하곤란 증상이 소량 호전되었으나, 추적관찰 3개월 차에 다시 연하곤란이 악화되는 소견을 보이며 외래에서 시행한 후두내시경 상에서 반흔조직의 재 협착 소견이 확인되어 첫 수술 4개월 뒤 다시 TOVS를 통해 반흔을 제거하였다. 두번째 수술 1개월 뒤 시행한 외래 추적 관찰에서 연하곤란 증상이 호전되었으며, 후두 내시경 상에서도 인두 협착이 호전되었음을 확인하였다.(Fig. 1D) 이후 1년간 재협착 없이 관찰 중이다.

2. 증례 2

49세 여성으로 약 35년 전부터 지속된 구강 궤양으로 본원 내원하였다. 환자는 타원에서 재발성 아프타성 구내염 진단 하 약제 사용하며 경과 관찰 중이었으나 1년 내내 반복적으로 발생하는 구강 점막 통증을 호소하였고, 최근에는 호흡곤란 및 연하곤란이 발생하였으며, 타원 검사 상 인두 협착 소견 확인되어 본원 의뢰되었다. 외래에서 시행한 후두내시경 검사에서 설근부부터 인두 후벽으로 이어지는 양측의 섬유성 반흔조직과 이로 인한 구인두 및 하인두 공간의 협착을 확인할 수 있었다.(Fig. 2A) 이는 후두개 및 양측 이상과, 하인두 측벽에 대한 정상적인 관찰을 어렵게 만들었다. 촬영한 경부 전산화단층촬영 상에서 비인두, 구인두, 하인두 및 후두개 상에 조영 증강되는 점막의 비대와 구인두, 하인두 협착이 확인되어 만성 염증 의증 소견을 보였다. 인두 협착증 진단 하 경구강 비디오 수술을 시행하였다. 전

Fig. 2. Pharyngeal stenosis caused by IgG4-related disease. (A) Initial finding. (B) Postoperative finding after the first operation. (C) Recurred stenosis.

Fig. 3. Operative finding of the second transoral videolaryngoscopy (TOVS). (A) Adhesiolysis with monopolar cautery. (B, C) Visualized larynx after surgery. (D) Postoperative finding.

신 마취 하 FK-WO retractor를 이용하여 수술부위를 노출시킨 후 단극 전기소작기를 이용하여 구인두와 하인두를 막고 있는 섬유성 반흔조직의 후벽을 절개하였고, 절개부 주변의 조직을 제거하고 마이토마이신(mitomycin C, MMC)을 절개부에 주입하였다.(Fig. 2B) 병리조직검사 시행하였으며 결과 상 궤양과 섬유화를 동반한 중등도의 만성 염증 조직이 확인되었다.

외래 추적 관찰 시 구인두 및 하인두의 협착 호전된 소견 보였으며, 연하곤란 및 호흡곤란 증상이 상대적으로 호전되었다고 느꼈다. 본원 류마티스 내과 진료 의뢰하였으며 조직 검사 및 임상증상, 혈액검사 결과 상 IgG4-RD 의증 진단되어 경구 스테로이드(methylprednisolone) 치료를 시작하였다. 2년 간의 추적 관찰 기간 동안 환자는 임상증상 악화 없이 지냈으나, 수술 2년 뒤에는 다시 연하곤란과 호흡곤란이 발생하여 첫 수술로부터 25개월 차에 TOVS 재수술을 시행하였다.(Fig. 2C) 첫 수술보다 광범위하게 양측 인두 후두개 추벽부터 인두 후벽까지 절제술을 시행하고 재협착을 막기 위해 mitomycin을 국소 점적하고 스테로이드(triamcinolone)를 절제부에 주입하였다.(Fig. 3A-C) 외래 추적 관찰 시행하며 시행한 후두 내시경 상에서 협착이 호전되었으며 환자의 호흡곤란 증상 및 연하곤란 증상도 호전되어 정상식이 가능함을 확인하였다.(Fig. 3D) 재수술 6개월 뒤 시행한 비디오 투시 연하 검사 상에서는 성문상부 침투(supraglottic penetration) 소량 확인되나 흡인은 없는 상태로 정상식이 지속 가능함을 확인하였다.

고찰

두경부암의 방사선 치료 이후 구강건조증, 신경근 기능 이상, 상부 호흡소화관의 점막과 근육 섬유화, 림프부종, 그리고 기계적인 폐색과 같은 여러 원인이 방사선 치료 이후의 연하곤란을 유발할 수 있다¹⁰. Wang은 이 중에서 식도-인두 협착이 두경부암 방사선 치료 이후 7.2%의 환자에서 발견될 정도로 드물지 않게 발견되나 그 발생 빈도와 삶의 질에 미치는 영향에 비해 상대적으로 적은 관심을 받아왔다고 밝히고 있다¹.

두경부암의 치료 후 발생하는 지연성 연하곤란은 경부식도와 인두수축근에 가해지는 방사선 조사량과 방법, 그리고 항암치료의 병행 여부에 따라 그 정도와 빈도가 달라진다^{11,12}. 점차 적용범위를 넓혀가는 세기조절 방사선치료(intensity modulated radiation therapy, IMRT)의 경우에는 인두-식도 협착의 위험도가 16.7%까지 증가하며¹, 식도 협착의 경우에는 방사선과 동시항암치료 병행 시 그 발생위험도가

22-37%까지 증가한다는 보고도 있다¹³. 발생 과정은 보통 방사선과 항암치료 중에서의 점막 손상과 함께 시작되며, 극히 일부에서는 스스로 호전되는 경우도 있으나, 대부분의 경우는 서서히 진행되어 점막의 협착으로 진행된다¹¹.

IgG4-RD는 IgG4 양성 형질세포의 조직내 침윤과 함께 조직의 비대를 유발하는 질환으로서, 비교적 최근에 그 질환의 영역이 확립되고 있다. 두경부에서는 Mikulicz's 질환, 리델 갑상선염(Riedel's thyroiditis), Küttner 종양과 같은 질환이 최근의 연구를 통해 IgG4-RD와 연관이 있는 것으로 확인되고 있다⁵. 또한 이전에는 원인을 알 수 없던 각종 안구 위종양, 특발성 경부 섬유화, 특발성 경수막염(pachymeningitis)과도 연관성이 제시되고 있다⁷. 드물게 인두 및 후두 영역을 침범하는 섬유증식성 병변으로 나타날 수 있으며, 베체트병이나 베제너병과 같은 류마티스 질환과 혼동될 수도 있다⁸.

두경부에서는 침범당한 악하선, 눈물샘, 림프절 등의 점진적인 비대 소견 혹은 부비강, 인후두 영역의 섬유화 및 종괴 형태의 병변이 확인되는 경우 고려해볼 수 있으며, 혈청 내 IgG4 농도(135 mg/dL 이상)이나 호산구증, 감마글로불린혈증과 같은 소견이 진단에 도움이 될 수 있다. 결정적으로는 병리적으로 확인되는 조직 내 IgG4 양성 형질세포의 침윤과 동반되는 섬유화, 폐색성 정맥염, 누선염 등의 소견이 확인되는 경우 진단할 수 있다¹⁴. 본 증례에서 IgG4-RD를 진단받은 환자의 경우에도 이전 병원에서 재발성 아프타성 구내염을 진단받고, 또 베체트병과 비슷한 소견을 보여 다른 류마티스 질환과의 감별을 시행하는 과정에서 진단과 치료가 지연되었다. 시행한 검사 상에서 IgG4의 혈장 농도는 정상 수준으로 확인되었으나, 실제 통계적으로 3-30%의 IgG4-RD 환자가 정상 혈청 IgG4 농도를 보여 진단에 필수적인 조건은 아닌 것으로 알려져 있다¹⁵. 조직 검사 상 IgG4-RD를 시사하는 섬유화를 동반한 만성 염증 소견이 확인되었으며, 추후 확진을 위해서는 특수 면역 염색을 통한 IgG4 양성 형질세포의 침윤 소견을 확인하는 과정이 필요할 것이다.

인후두 영역의 병변에 대해 구강을 통하여 수술적으로 접근하려는 시도는 주로 구인두, 하인두 및 후두에 발생하는 종양에 대한 치료를 목표로 발전해왔으며, 현미경 및 내시경, 그리고 로봇의 발달과 함께 그 적용범위가 점차 넓어져왔다. 1990년대에는 침습적인 개방 수술을 대체하는 방식으로 후두경 레이저 미세수술이 도입되었으며, 적용 범위가 후두 및 하인두, 성문상부 영역까지 확장되었다¹⁶⁻¹⁸. 수술 중 현미경을 통한 시야는 병변에 대한 세부적인 정보를 얻기에 용이하였으나, 여전히 수술 범위에 대한 넓은 시야

를 얻기에 어려웠으며, 특히 도구를 통한 양손 조작시에는 시야가 더 좁아지는 단점이 있었다.

경구강 비디오 수술은 2000년대 초부터 인후두 영역의 병변에 대한 접근과 시야를 개선하려는 노력과 함께 등장한 수술법이다. 현재까지 시도된 치료 중 저자들이 확인한 바에 따르면 경구강 비디오 수술(transoral videosurgery, TOVS)을 통해 상부 호흡소화관의 협착증을 치료한 사례는 없는 것으로 보인다. 인두나 후두 영역의 병변을 Weerda 후두경 혹은 FK-WO retractor를 통해 노출시키고, 보조의가 경성 혹은 굴곡형 비디오 내시경을 담당하여 넓은 시야를 확보하며, 집도의는 양손 조작으로 각종 수술 도구를 정밀 조작하게 된다.

경구강 비디오 수술(TOVS)은 후두경 레이저 미세수술에 비해 넓은 시야를 제공하며, 굴곡형 비디오 내시경을 이용하는 경우 견인기를 다시 위치시키는 번거로움 없이도 여러 해부학적 위치에 접근할 수 있다. 또한 양손 조작시에도 병변에 대한 시야를 안정적으로 확보할 수 있다. 최근 많은 발전을 보이는 경구강 로봇 수술(transoral robotic surgery, TORS)과 비교 시 적은 비용과 간단한 준비 과정, 그리고 집도의가 도구를 통해 수술 과정에서의 촉감을 전달 받을 수 있다는 상대적 장점을 보이면서도 인두 및 후두 영역의 병변을 일괄절제 할 수 있어 치료적 접근법으로 우수함을 보이고 있다^{19,20}.

본 증례 환자들의 경우 각각 항암방사선 치료 합병증과 IgG4-RD 의증으로 인한 인두 협착이 발생한 것으로 보인다. 2예 모두 심한 조직의 섬유화와 조직 비대소견을 보였으며, 비디오 투시 연하 검사 상 인두기에서 연하기능의 장애를 보이고 있어 치료적 접근이 필요한 경우였다. 섬유 반흔 조직의 비대가 심해 일반적인 풍선확장술이나 스텐트와 같은 시도가 어려운 상황에서, 경구강 비디오 수술은 해당 병변에 대해 넓고 적절한 시야를 제공하였으며, 수술 과정에서도 충분한 절제범위를 확보하고 수술을 시행할 수 있었다. 재협착의 가능성이 있으나 협착의 범위가 크고 반흔의 두께가 깊은 경우로 단극 전기소작기를 통한 절제를 시행하였으며, 실제 추적 관찰 과정에서 광범위 절제를 시행한 이후 재협착 없이 안정적인 경과를 보여주었다. 경구강 비디오 수술을 통한 치료는 기존의 고식적인 개방 수술처럼 침습적인 치료의 필요성도 줄여주었다.

본 증례에서는 인두 협착을 진단받은 2예의 환자를 소개하고 기존에는 시도되지 않았던 새로운 수술 방법을 통한 치료 방향을 제시하였다. 연하곤란과 인두 협착 소견을 보이는 환자의 경우 항암방사선 치료 합병증과 같은 명확한 원인이 있는 경우에는 즉시 치료 계획을 세우고 시행하는

것이 환자의 연하곤란 해소를 앞당겨 삶의 질에 도움이 될 수 있다. 다만 그 원인이 불명확한 경우 류마티스 질환과 같은 전신적 질환의 인후두 침범의 가능성을 고려하여야 하며, IgG4-RD 또한 그 고려대상이 될 수 있다. 경구강 비디오 수술은 인두와 후두부의 병변에 대한 적절한 수술적 접근방법을 제공하는 훌륭한 선택이 될 수 있으며, 기존의 종양 치료뿐만 아니라 인두 협착에서도 적절히 활용될 수 있음을 확인하였다.

REFERENCES

1. Wang JJ, Goldsmith TA, Holman AS, Cianchetti M, Chan AW. Pharyngoesophageal stricture after treatment for head and neck cancer. *Head Neck*. 2012;34:967-73.
2. Takes RP, Strojan P, Silver CE, Bradley PJ, Haigentz Jr M, Wolf GT, et al. Current trends in initial management of hypopharyngeal cancer: the declining use of open surgery. *Head & neck*. 2012;34:270-81.
3. Kamisawa T, Zen Y, Pillai S, Stone JH. IgG4-related disease. *The Lancet*. 2015;385:1460-71.
4. Stone JH, Zen Y, Deshpande V. IgG4-related disease. *N Engl J Med*. 2012;366:539-51.
5. Takano K, Yamamoto M, Takahashi H, Himi T. Recent advances in knowledge regarding the head and neck manifestations of IgG4-related disease. *Auris Nasus Larynx*. 2017;44:7-17.
6. Khoo JF, Batt M, Stimpson P, Safdar A. Supraglottic immunoglobulin-G4 related plasma cell granuloma: Case report and literature review. *Head & Neck*. 2014;36:E57-E9.
7. Reder L, Della-Torre E, Stone JH, Mori M, Song P. Clinical manifestations of IgG4-related disease in the pharynx: case series and review of the literature. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*. 2015;124:173-8.
8. Shaib Y, Ton E, Goldschmeding R, Tekstra J. IgG4-related disease with atypical laryngeal presentation and Behçet/granulomatous polyangiitis mimicking features. *Case Reports*. 2013;2013:bcr2013009158.
9. Spaulding SL, Ansari E, Xing MH, Sandler ML, O'Malley QF, Ho R, et al. Diagnosis and management of pharyngoesophageal stenosis: A comprehensive approach to prophylactic, endoscopic, and reconstructive treatment options. *American Journal of Otolaryngology*. 2021: 103003.
10. Murphy BA, Gilbert J. Dysphagia in head and neck cancer patients treated with radiation: assessment, sequelae, and rehabilitation. *Seminars in radiation oncology*; 2009: Elsevier; 2009. p.35-42.
11. Laurell G, Kraepelien T, Mavroidis P, Lind BK, Fernberg JO, Beckman M, et al. Stricture of the proximal esophagus in head and neck carcinoma patients after radiotherapy. *Cancer: Interdisciplinary International Journal of the American Cancer Society*. 2003;97:1693-700.

12. Lawson JD, Otto K, Chen A, Shin DM, Davis L, Johnstone PA. Concurrent platinum-based chemotherapy and simultaneous modulated accelerated radiation therapy for locally advanced squamous cell carcinoma of the tongue base. *Head & Neck: Journal for the Sciences and Specialties of the Head and Neck*. 2008;30:327-35.
13. Lawson JD, Otto K, Grist W, Johnstone PA. Frequency of esophageal stenosis after simultaneous modulated accelerated radiation therapy and chemotherapy for head and neck cancer. *American journal of otolaryngology*. 2008;29:13-9.
14. Deshpande V, Zen Y, Chan JK, Eunhee EY, Sato Y, Yoshino T, et al. Consensus statement on the pathology of IgG4-related disease. *Modern Pathology*. 2012;25:1181-92.
15. Khosroshahi A, Wallace Z, Crowe J, Akamizu T, Azumi A, Carruthers M, et al. International consensus guidance statement on the management and treatment of IgG4-related disease. *Arthritis and Rheumatology*. 2015;67:1688-99.
16. Karatzanis AD, Psychogios G, Waldfahrer F, Zenk J, Hornung J, Velegrakis GA, et al. T1 and T2 hypopharyngeal cancer treatment with laser microsurgery. *Journal of surgical oncology*. 2010;102:27-33.
17. Meyers EN, Steiner W, Ambrosch P, Hess C, Kron M. Organ preservation by transoral laser microsurgery in piriform sinus carcinoma. *Otolaryngology—Head and Neck Surgery*. 2001;124:58-67.
18. Ambrosch P, Kron M, Steiner W. Carbon dioxide laser microsurgery for early supraglottic carcinoma. *Annals of Otology, Rhinology & Laryngology*. 1998;107:680-8.
19. Imanishi Y, Ozawa H, Sakamoto K, Fujii R, Shigetomi S, Habu N, et al. Clinical outcomes of transoral videolaryngoscopic surgery for hypopharyngeal and supraglottic cancer. *BMC Cancer*. 2017;17:445.
20. Shiotani A, Tomifuji M, Araki K, Yamashita T, Saito K. Videolaryngoscopic transoral en bloc resection of supraglottic and hypopharyngeal cancers using laparoscopic surgical instruments. *Annals of Otology, Rhinology & Laryngology*. 2010;119:225-32.