윤상인두근 기능부전과 광범위특발골격뼈형성과다증으로 인한 연하곤란 환자의 치료: 증례 보고

임채환¹ · 이효정² · 박윤길¹

¹연세대학교 의과대학 재활의학교실 및 희귀난치성 신경근육병재활연구소, ²분당제생병원 재활의학과

A Case of Dysphagia due to Cricopharyngeal Dysfunction and Diffuse Idiopathic Skeletal Hyperostosis

Chae Hwan Lim, M.D.¹, Hyo Jeong Lee, M.D.², Yoon Ghil Park, M.D., Ph.D.¹

¹Department of Rehabilitation Medicine, Rehabilitation Institute of Neuromuscular Disease, Yonsei University College of Medicine, Seoul, ²Department of Rehabilitation Medicine, Bundang Jeseang General Hospital, Seongnam, Korea

Cricopharyngeal dysfunction is a disorder in which excessive tension in the upper esophageal sphincter occurs leads to dysphagia. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis is a disease in which excessive bone formation is widely observed in various parts of the body including the cervical spine. This case report shows a dysphagia patient who had cricopharyngeal dysfunction combined with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. A male patient suffering from dysphagia for 4 months visited the hospital. He was examined by using a videofluoroscopic swallow study, which confirmed simultaneous cricopharyngeal dysfunction and diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. Considering the advanced age of the patient, a botulinum toxin injection was first administered to treat his cricopharyngeal dysfunction. The patient showed partial improvement with this treatment. However, dysphagia persisted due to incomplete occlusion of the epiglottis by the anterior osteophyte. The patient was in good general condition; therefore a partial cervical corpectomy was performed for cervical diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. The patient showed complete recovery from dysphagia post-surgery. In conclusion, two separate treatments were individually given; a botulinum toxin injection for cricopharyngeal dysfunction and surgery for diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, and each treatment was confirmed as effective. (JKDS 2022;12:74-78)

Keywords: Deglutition disorder, Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, Upper esophageal sphincter

서론

윤상인두근 기능부전(cricopharyngeal dysfunction,

CPD)은 상부식도괄약근의 과도한 긴장이 나타나는 질환으로 연하곤란을 일으킬 수 있다. CPD는 뇌경색 등의 신경학적 질환 외에도 위식도역류, 두경부암, 식도암 혹은 노화

투고일: 2021년 5월 2일, 심사일: 2021년 5월 15일, 게재확정일: 2021년 7월 19일

책임저자: 박윤길, 서울시 강남구 언주로 63길 20

(06229) 연세대학교 의과대학 재활의학교실

Tel: 02) 2019-3498, Fax: 02) 2019-4881, E-mail: DRTL@yuhs.ac

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License, which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited. Copyrights © The Korean Dysphagia Society, 2022.

등 다양한 원인에 의해 발생할 수 있다고 알려져 있으며, 이전 연구에 의하면 443명(신경학적 질환 177명, 두정부 혹은 식도암 142명, 기타 내과적 질환 128명)의 연하곤란 환자를 비디오 투시술(videofluoroscopic swallow study, VFSS)을 하였을 때 28명에서 CPD가 확인되었다¹.

광범위특발골격뼈형성과다증(diffuse idiopathic skeletal hyperostosis, DISH)은 Resnick 등에 의해 명명된 질환으로 상세 불명의 과도한 골 형성이 광범위하게 나타나는 질환을 말한다². DISH의 정확한 원인은 알려져 있지 않으나 이전 연구에 의하면 60세 이상의 사람 1/3에서 관찰된다고 보고된 바 있으며, 나이와 밀접한 관계가 있는 것으로 생각되고 있다³. 척추 전방에도 DISH가 발생할 수 있으며, 과골화증이 진행하여 인두를 압박해 연하곤란을 유발할 수 있다고 알려져 있다⁴.

이번 증례에서는 CPD와 DISH가 동시에 확인된 연하곤란 환자의 증상 양상과 그 치료 과정을 보고하고자 한다.

증례

88세 남자 환자가 4개월 간 지속된 연하곤란을 호소하였다. 고혈압, 당뇨 외에 특이 과거력 및 수술력 없는 환자로 유동식 섭취는 가능하나 고형식을 삼키기 어려워하였으며 증상이 점점 악화하면서 소화기내과 외래에 내원하였다. 상부 위장관 내시경 검사 시행하였으며, 검사상 소화기계는 만성 위염 외에 특이 증상 없었으나 성대가 경추 5-6번 전방 골극에 의해 눌러있는 소견 있어(Fig. 1) 성대 질환 의심

Fig. 1. Vocal cord compression identified in esophagogastroduodenoscopy.

하 이비인후과 외래 진료 시행하였다.

이비인후과에서 시행한 후두경 검사 상 성대 마비나 양성 성대 점막 질환 없는 것으로 확인되었으며, 목소리 변화나 이상 호흡음도 관찰되지 않았으므로, 다른 원인 질환 감별 위해 재활의학과 외래에 내원하여 VFSS 검사를 시행하였다.

VFSS 검사 결과 구강기는 정상 소견 보였으나, 인두기에서 검사 식이가 후두개곡(valleculae)과 조롱박오목(pyriform sinus)에 50% 이상 잔류한 것 확인되었고, 상부 위장관 괄약근이 잘 열리지 않으며 이중 삼킴(double swallowing)해도 잔류 식이가 제거되지 않아 CPD에 합당한 소견을 보였다(Fig. 2A) 그 외 경추 2-6번에 걸쳐 DISH 관찰되었으며, 전 검사 상 기도 내 흡인은 관찰되지 않았다.

CPD와 DISH가 동시에 확인되어, 추가적인 검사 및 치료 방향을 결정하기 위해 소화기내과 입원하였다. 환자가 고령이고 CPD가 있는 점 감안하여 뇌경색 가능성 감별 위해 뇌 자기공명영상 검사 진행하였으나 뇌경색 소견은 없었다. 환자 전신 상태 고려 하여, 치료 방법으로 우선 CPD에 대해 보툴리눔 독소 주입술 시행 후 VFSS 추적 검사를 시행하여 연하 곤란 호전 여부를 확인 후 DISH에 대한 수술적 치료 여부를 결정하기로 하였다.

상부 위장관 내시경 시행하 윤상인두근에 보툴리눔 독소(한국엘러간 주) 주입술 20 unit씩 3부위 주입하였으며 다른 부작용 없이 시술 완료되었다. 보툴리눔 독소 주입술 1일 후 VFSS 추적 검사 시행하였으며, 검사 상 식이가 후두개곡과 조롱박오목에 20-30% 잔류한 것 확인되었다. 이전과 비교하여 상부 식도 괄약근 근처인 경추 5-6번 위치에서의 식이 통과는 더 원활한 소견 보였으나, 경추 3-4번 위치에 존재하는 전방 골극에 의한 후두개의 불완전 폐쇄는 호전되지 않아 연하곤란 지속되는 것으로 확인되었다(Fig. 2B) 환자 전신 상태 양호하여 DISH에 대한 수술적 치료 시행하기로 결정하였다.

Fig. 2. Videofluoroscopic swallow study. (A) Initial evaluation. (B) After botulinum toxin injection. Black arrow: Vallecular residue. Black circle: Upper esophageal sphincter residue.

수술은 보툴리눔 독소 주입술 9일 후 진행되었다. 척추신경외과에서 전신 마취 하 경추 부분 추체제거술(partial corpectomy)을 시행하였다. 수술 중 경추 2-6번의 전중인 대골화 및 과골화증 부위 제거 진행되었으며 특히 합병증 없이 수술 종료하였다. 수술 전 후 단순 방사선 촬영 검사 시행하여 전방인대골화 및 과골화증 부위 제거가 잘 된 것 확인하였다.(Fig. 3)

수술 11일 후 VFSS 추적 검사 진행하였다. 이전에 비해 후두개골과 조롱박오목에 검사 식이 잔류된 것 거의 없었으며 CPD, DISH 모두 관찰되지 않았다.(Fig. 4) 환자 이후 고형식 섭취 시에도 원활하게 식이 섭취 가능하였다.

고찰

본 증례의 환자는 CPD와 DISH가 동시에 확인되어 CPD에 대한 보툴리눔 독소 주입술 및 DISH에 대한 경추 부분 추체제거술 시행 후 연하곤란이 호전된 사례이다.

CPD의 치료 방법은 여러 가지가 알려져 있으며 연하재활치료 등 보존적 치료 외에 침습적인 치료를 고려할 수 있다. 침습적 방법 중 현재 널리 사용되는 방법은 보툴리눔 독소 주입술, 풍선 확장술 및 윤상인두근 절제술이 있다⁵. 보툴리눔 독소 주입술의 경우 이전 연구들에서 시술 전에 비해 43-74%의 성공률을 보였으며^{6,7} 지속효과가 5-6개월 정도라는 단점이 있으나 비교적 간단한 방법으로 치료 효과를 얻을 수 있어 널리 사용되고 있다. 풍선 확장술은 기계적 확장술의 한 종류로 풍선을 이용해 상부 식도 괄약근을 물리적으로 넓혀서 CPD를 치료하는 방법이다. 다른 두 방법에 비해 가장 비침습적인 치료일 뿐 아니라 그 치료 효과 또한 이전 연구들에서 지속적으로 입증되고 있어 임상에서 자주 사용되고 있다⁸. 그러나 아직 표준화된 방법이 없어 풍선의 종류, 시술 시간 및 시술 빈도 등에 있어 시술자 개

인의 경험에 의존할 수 밖에 없으며⁹ 보툴리눔 독소 주입술처럼 지속 효과가 길지 않아 반복적인 시술이 필요하다는 단점이 있다¹⁰. 윤상인두근 절제술은 가장 침습적인 방법으로 CPD 환자들에게 1차적으로 적용하기에는 어려움이 있을 수 있으나, 앞의 두 방법보다 치료 성공률이 높다고 보고되었다¹¹. 따라서 적절한 치료에도 연하곤란이 지속될 경우 고려해 볼 수 있는 치료 방법이다.

DISH로 인해 연하곤란이 발생한 경우 해당부위의 수술적 절제를 통해 치료를 진행한다. 수술의 치료 성공률은 높으나 장기 추적 관찰 시 재발이 보고되고 있는데, Urrutia 등에 의하면 DISH에 의한 연하곤란이 있어 수술을 받은 5명의 환자에서 수년 후 추적 관찰(1-9년) 시에도 연하곤란이 재발하지 않았으나¹², Miyamoto 등에 의하면 수술적 절제를 받은 DISH 환자 7명 중 2명에서 추적 관찰(10-11년 후) 시 재발이 확인되었다¹³.

DISH가 연하곤란을 일으키는 정확한 기전은 명확치 않으며, 전방 골극의 직접적인 식도 압박, 윤상 인두 주변부와 물리적인 충돌, 골극 주변의 염증 반응에 의한 인두 근육 손상 혹은 골극에 의한 통증 등의 여러 요소가 복합적으로 작용하여 발생하는 것으로 생각된다¹⁴. 이전 연구들에 의하면 골극의 위치에 따라 연하곤란 양상이 다른 것으로 보고되고 있다. 경추 3-4번에 발생한 전방 골극은 후두개의 불완전 폐쇄를 유도하여 연하곤란을 일으키는 것으로 생각되며^{15,16}, 경추 5-6번에 발생한 전방 골극은 윤상 인두근의 연축(spasm)을 유도하여 연하곤란을 일으킬 수 있다고 생각된다^{17,18}.

Fig. 3. (A) C-spine Lateral X-ray before partial corpectomy. (B) C-spine Lateral X-ray after partial corpectomy. White arrow: Osteophyte.

Fig. 4. Videofluoroscopic swallow study after partial corpectomy.

CPD와 DISH가 동시에 있는 환자의 경우 각각의 질환에 대한 수술적 치료를 동시에 진행 후 그 결과를 보고한 연구가 있었다. Hines 등에 의하면 전방 감압 및 유합술(anterior cervical decompression and fusion)과 윤상인두근 절제술을 동시에 받은 6명의 환자들 중 5명에서 연하곤란의 치료 효과가 확인되었으며¹⁹, 다른 논문에서는 전방 골증식체제거(osteophylectomy)와 윤상인두근 절제술을 동시에 받은 9명의 환자들 중 8명에서 연하곤란의 완치 혹은 증상 호전이 확인되었고, 이들 중 2명에서 장기 추적 시 재발이 확인되었다²⁰.

이전 연구를 찾아본 바로, CPD와 DISH가 동시에 있는 환자에서 보툴리눔 독소 주입술 후 DISH에 대한 수술적 절제술을 시행한 경우는 보고된 적이 없었다. 이번 증례의 경우, 환자의 고령 및 지속된 연하곤란에 의한 전신 상태 저하를 감안하여 바로 수술을 시행하지는 않고 우선 CPD에 대해 보툴리눔 독소 주입술을 시행하여 치료 효과를 확인하였다. VFSS 검사를 통해 시술 전보다 연하곤란이 일부 호전된 것은 확인되었으나, DISH에 의한 물리적 압박이 해결되지 않아 연하곤란이 지속되는 상태임을 확인하여 추가적으로 전방 추체제거술을 시행하여 연하곤란이 치료된 것을 확인하였다.

통상 보툴리눔 독소 주입술 5-7일 후 효과가 나타나는 것으로 알려져 있으나 이번 증례에서는 보툴리눔 독소 주입술 다음 날 효과를 확인하기 위해 VFSS를 시행하였다. 일반적인 시기에 맞추어 검사를 시행했다면 최대의 효과를 확인할 수도 있었겠지만, 타과에 입원 중이던 고령의 환자 상태를 고려하였을 때, 5-7일 기다리기에는 어려움이 있을 것으로 판단하여, 다소 빠른 시일에 검사를 시행하였다. 보툴리눔 독소 주입술 전후 VFSS 검사를 비교하였을 때, 이전에는 후두개곡과 조롱박오목에 50% 이상의 잔류 식이가 확인되었으나, 이후에는 잔류 식이 20-30%로 감소하였고 상부 식도 괄약근에서의 식이 통과 호전 양상을 확인하였다. 반면 DISH에 의한 후두개의 불완전 폐쇄는 지속됨이 관찰되었고, 이는 보툴리눔 독소 주입술로 호전을 기대하기는 어려우므로 더 기다리지 않고 수술을 시행하기로 결정하였다.

본 증례에서는 CPD에 대해서 보툴리눔 독소 주입술, DISH에 대해서 수술적 치료를 개별적으로 시행하여 각각의 치료 효과를 확인할 수 있었다. 앞에서 언급한 것처럼 보툴리눔 독소 주입술 효과가 영구적이지 않고, DISH 또한 수년 후 재발할 가능성이 높기 때문에 본 증례의 경우에도 장기적인 추적 관찰이 필요하겠다. 또한, CPD와 DISH가 동반된 경우가 흔치 않고, 이런 환자들에게 보툴리눔 독소 주입술과 수술적 절제를 단기간 내에 연속으로 시행하였을

때의 치료 효과가 보고된 적이 없어, 앞으로 유사한 환자들을 대상으로 한 검증이 필요하겠다.

CONFLICT OF INTEREST

The authors declare that they have no conflict of interest.

REFERENCES

1. Baredes S, Shah CS, Kaufman R. The frequency of cricopharyngeal dysfunction on videofluoroscopic swallowing studies in patients with dysphagia. *American Journal of Otolaryngology*. 1997;18:185-9.
2. Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology*. 1976;119:559-68.
3. Resnick D, Shaul SR, Robins JM. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): Forestier's disease with extra-spinal manifestations. *Radiology*. 1975;115:513-24.
4. Kritzer RO, Parker WD. DISH: a cause of anterior cervical osteophyte-induced dysphagia. *Spine*. 1988;13:130-2.
5. Kuhn MA, Belafsky PC. Management of cricopharyngeus muscle dysfunction. *Otolaryngologic Clinics of North America*. 2013;46:1087-99.
6. Moerman M, Callier Y, Dick C, Vermeersch H. Botulinum toxin for dysphagia due to cricopharyngeal dysfunction. *European archives of oto-rhino-laryngology*. 2002;259:1-3.
7. Zaninotto G, Ragona RM, Briani C, Costantini M, Rizzetto C, Portale G, et al. The role of botulinum toxin injection and upper esophageal sphincter myotomy in treating oropharyngeal dysphagia. *Journal of Gastrointestinal Surgery*. 2004;8:997-1006.
8. Randall DR, Evangelista LM, Kuhn MA, Belafsky PC. Improved symptomatic, functional, and fluoroscopic outcomes following serial "series of three" double-balloon dilation for cricopharyngeus muscle dysfunction. *Journal of Otolaryngology-Head & Neck Surgery*. 2018;47:1-8.
9. Dou Z, Zu Y, Wen H, Wan G, Jiang L, Hu Y. The effect of different catheter balloon dilatation modes on cricopharyngeal dysfunction in patients with dysphagia. *Dysphagia*. 2012;27:514-20.
10. Marston AP, Maldonado FJ, Ravi K, Kasperbauer JL, Ekbom DC. Treatment of oropharyngeal dysphagia secondary to idiopathic cricopharyngeal bar: surgical cricopharyngeal muscle myotomy versus dilation. *American journal of otolaryngology*. 2016;37:507-12.
11. Kocdor P, Siegel ER, Tulunay-Ugur OE. Cricopharyngeal dysfunction: a systematic review comparing outcomes of dilatation, botulinum toxin injection, and myotomy. *The*

- Laryngoscope. 2016;126:135-41.
12. Urrutia J, Bono CM. Long-term results of surgical treatment of dysphagia secondary to cervical diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *The Spine Journal*. 2009;9:e13-e7.
13. Miyamoto K, Sugiyama S, Hosoe H, Iinuma N, Suzuki Y, Shimizu K. Postsurgical recurrence of osteophytes causing dysphagia in patients with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *European Spine Journal*. 2009;18:1652.
14. Eviatar E, Harell M. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis with dysphagia: a review. *The Journal of Laryngology & Otology*. 1987;101:627-32.
15. Masiero S, Padoan E, Bazzi M, Ponzoni A. Dysphagia due to diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: an analysis of five cases. *Rheumatology International*. 2010;30:681-5.
16. Marks B, Schober E, Swoboda H. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis causing obstructing laryngeal edema. *European archives of oto-rhino-laryngology*. 1998;255:256-8.
17. Abdel-Aziz M, Azab N, Lasheen H, Naguib N, Reda R. Swallowing disorders among patients with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Acta Oto-Laryngologica*. 2017;137:623-6.
18. Crowther J, Ardran G. Dysphagia due to cervical spondylosis. *The Journal of Laryngology & Otology*. 1985;99:1167-9.
19. Hines K, Stricsek G, Mahtabfar A, Prasad S, Jallo J, Sharan A, et al. The Role of Cricopharyngeal Myotomy After Anterior Cervical Decompression and Fusion Operations. *World Neurosurgery*. 2020;137:146-8.
20. Hines K, Elmer N, Detweiler M, Fatema U, Gonzalez GA, Montenegro TS, et al. Combined Anterior Osteophyctomy and Cricopharyngeal Myotomy for Treatment of DISH-Associated Dysphagia. *Global Spine Journal*. 2020:2192568220967358.