

수술 후 지속되는 과다비성 환자에서 지속성 기도양압 치료의 장기적 유효성: 증례보고

권주용^{1,2} · 박미경² · 백릉민^{1,2}

서울대학교 의과대학 성형외과학교실¹, 분당 서울대학교병원 성형외과²

Long-term Effectiveness of Post-operative Continuous Positive Airway Pressure (CPAP) Therapy for Treating Hypernasality: Case Report

Ju Yong Kwon, M.D.^{1,2}, Mi Kyong Park, S.L.P.²,
Rong Min Baek, M.D.^{1,2}

¹Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Seoul National University College of Medicine, Seoul; ²Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Seoul National University Bundang Hospital, Gyeonggi, Korea

Purpose: In some patients with velopharyngeal insufficiency (VPI), Hypernasality can persist after surgical management. Continuous Positive Airway Pressure (CPAP) is applied to these patients for treating hypernasality. The purpose of this study is to report follow-up results of postoperative CPAP therapy.

Methods: After performing palatal lengthening, CPAP therapy was applied to three patients for eight weeks from July of 2008 to November of 2009. Perceptual evaluation, nasometry, and nasopharyngeal endoscopy were performed to evaluate hypernasality, nasalance and size of the gap at velopharyngeal port. Each evaluation was made before surgery, right after CPAP therapy and during follow-up of more than a year after CPAP therapy.

Results: All of the patients showed improvement in hypernasality right after CPAP therapy according to the auditory perceptual evaluation, nasometry and nasopharyngeal endoscopy. But the improvement in hypernasality in these patients did not last during follow-up.

Conclusion: In this study, our results suggest that CPAP therapy is effective in reducing hypernasality for postoperative VPI patients immediately after the therapy, but hypernasality may be worsen in some patients during follow-up. Therefore we recommend follow-ups after CPAP therapy to see if the efficacy of CPAP therapy lasts.

Key Words: Velopharyngeal insufficiency, Hypernasality, Continuous positive airway pressure (CPAP), Long-term effectiveness

I. 서 론

구개인두부전(velopharyngeal insufficiency) 환자에서는 과다비성(hypernasality), 비누출(nasal emission), 압력자음의 약화, 때로는 보상조음 등의 말소리 문제가 관찰된다. 구개인두부전으로 인한 과다비성을 치료하기 위해서 인두피관술(pharyngeal flap), 인두성형술(sphincteric pharyngoplasty), 구개연장술(palatal lengthening) 등의 수술방법이 이용되고 있다. 수술 후 대부분의 경우 과다비성과 비누출의 문제가 해결되지만 일부 환자들에서는 수술 후에도 과다비성이 어느 정도 남게 된다.¹

수술 후 지속되는 과다비성을 치료하기 위한 방법으로는 지속성 기도양압 치료법(continuous positive airway pressure therapy, CPAP)이 있다. Kuehn 등^{2,3}과 고정석 등⁴은 구개인두부전 환자에서 CPAP을 사용하였고 그 결과를 보고하였다. 저자들은 수술 후 지속되는 구개인두부전 환자에서 CPAP 치료를 통해서 과다비성을 치료한 후 1년 이상 추적관찰을 한 결과 과다비성이 다시 악화된 소견을 보인 증례가 있어 이를 보고하고자 한다.

II. 증 례

가. 지속성 기도양압 치료법

Kuehn이 제안한 치료 과정에 따르면 대역한 CPAP 기기로 가정에서 주 6회씩 총 8주 동안 진행하도록 하였다.² 치료 시간은 첫 주에 10분씩 하다가 매주 2분씩 늘려 8주에는 24분 연습하도록 하였다. 본 연구에서는 CPAP 기기의 8주 대역가 어려워 언어치료실 기기를 이용하여 치료실에서 진행하였다. 8주 동안 주 3회 치료하였으며, 첫째 주에는 환자의 협응 정도에 따라 1회에 10~20분씩 진행한 후 둘째 주부터 차츰 시간을 늘려 1회에 30~35분씩 치료하였다. 목표 공기압은 첫째 주에 4 cm H₂O로 시작하여 매주 0.5 cm H₂O씩 증가하여 마지막 주에는 8 cm H₂O로 하였다. 비강으로

Received September 1, 2011

Revised October 13, 2011

Accepted October 13, 2011

Address Correspondence: Rong Min Baek, M.D., Ph.D., Department of Plastic and Reconstructive Surgery, Seoul National University Bundang Hospital, 300 Gumi-dong, Bundang-gu, Seongnam-si, Gyeonggi-do 463-707, Korea. Tel: 82-31-787-7221 / Fax: 82-31-787-4055 / E-mail: ronbaek@snu.ac.kr

들어온 양압에 연구개가 저항 운동을 하도록 무의미 음절과 짧은 문장을 계속 조음하였다. 무의미 음절은 /양가, 양기/처럼 '모음 + 비강자음 + 구강자음 + 모음'의 순서로 하였다. 이것은 비강자음에서 연구개가 내려가도록 한 후 구강자음에서는 비강으로 공급되는 양압에 저항하며 올라가도록 한 것이며,² 고모음을 많이 사용하여 연구개가 더 높이 올라가도록 하였다.⁵ 짧은 문장 표현은 각 환아에 따라 비음화의 습관이 많은 표현을 이용하였는데 예를 들면 /나한테 자동차 보내줘/처럼 비강자음과 구강자음이 번갈아 조음되는 운반구(carrier phrase)를 만들어 게임을 하면서 반복 조음하도록 하며 치료하였다.

나. 증례

2008년 7월부터 2009년 11월까지 CPAP 치료를 한 아동 중 1년 이상 추적관찰을 한 3명의 치료결과를 보고한다.

1) 증례 1

9세 10개월 된 남자 환아가 과다비성을 주소로 내원하였다. 환아는 점막하 구개열(submucous cleft palate)로 5세에 타 병원에서 구개성형술을 받았었다. 청지각적 평가(auditory perceptual evaluation)에서 과다비성은 2등급(0등급: 정상공명-3등급: 심한 과다비성, Table I)이었고,⁶ 비음치 측정기(nasometry)에서 비강자음이 제외된 문단의 비음치는 49%(정상: 11.25 ± 5.63)이었다. 비인두 내시경(nasopharyngeal endoscopy) 결과, 구개인두는 대칭적 관상형태(symmetric, coronal pattern)의 움직임 보였다. 구개범인두문(velopharyngeal port)의 간격 크기(gap size)는

Table I. Grade of Hypernasality

Grade	Hypernasality
0	Within normal limits
1	Mild
2	Moderate
3	Severe

3등급(1등급: 완전폐쇄-6등급: 구개인두 움직임 없음, Table II)이었다(Fig. 1). 환아는 10세에 구개연장술(double opposing Z-plasty)을 시행받았고, 수술 후 과다비성이 1등급, 비음치는 33%이었다. 이에 수술 후 9개월에 CPAP 치료를 시행하였다. CPAP 시행 직후 과다비성이 0~1등급, 비음치는 30%로 호전된 소견을 보였고, 내시경에서 구개범인두문의 간격 크기도 2등급으로 호전되었다(Fig. 1). CPAP 시행 16개월 후 과다비성 1등급, 비음치 44%로 과다비성이 증가된 소견을 보였다(Table III).

2) 증례 2

4세 9개월 된 남자 환아가 과다비성을 주소로 내원하였다. 불완전 구개열(incomplete cleft palate)로 생후 18개월에 타 병원에서 구개성형술을 받았다. 청지각적으로 과다비성은 2등급, 비강자음이 제외된 문단에서 비음치는 33%이었다. 비인두 내시경에서 구개인두는 대칭적 관상형태로 움직이고, 구개범인두문의 간격 크기는 3등급이었다(Fig. 2). 환아는 5세 4개월에 구개 연장술을 시행받았다. 수술 후 1개월에 시행한 언어평가에서 과다비성 1등급, 비음치 19%로 과다비성이 남아있어서 CPAP 치료를 시행하였다. 시행 직후 과다비성 0~1등급, 비음치 23%, 내시경에서 간격 크기 2등급이었다(Fig. 2). 환아는 CPAP 시행 18개월 후 과다비성 1등급으로 과다비성이 증가하였고, 내시경에서 간격 크

Table II. Grade of Gap Size

Grade	Gap size
1	Full closure
2	Touch closure
3	Small (close 80% or more of the resting gap)
4	Inermediate (close between 50~80% of the resting gap)
5	Large (close less than 50% of the resting gap)
6	Hypodynamic velopharynx

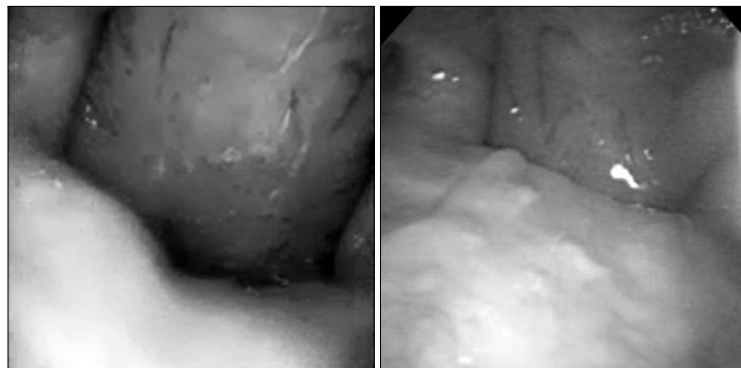


Fig. 1. Case 1. (Left) Preoperative nasoendoscopic view. (Right) Post-CPAP nasoendoscopic view.

Table III. Patient's Data of Hypernasality, Nasalance, Gap Size

	Case 1			Case 2			Case 3		
	Hypernasality	Nasalance	Gap size	Hypernasality	Nasalance	Gap size	Hypernasality	Nasalance	Gap size
Preoperative	2	49%	3	2	33%	3	2	52%	3
Pre-CPAP	1	33%	NA	1	19%	NA	1	48%	NA
Post-CPAP	0~1	30%	2	0~1	23%	2	0	11%	1
Follow-up	1	44%	3	1	NA	2	0~1	8%	2

NA, not available.

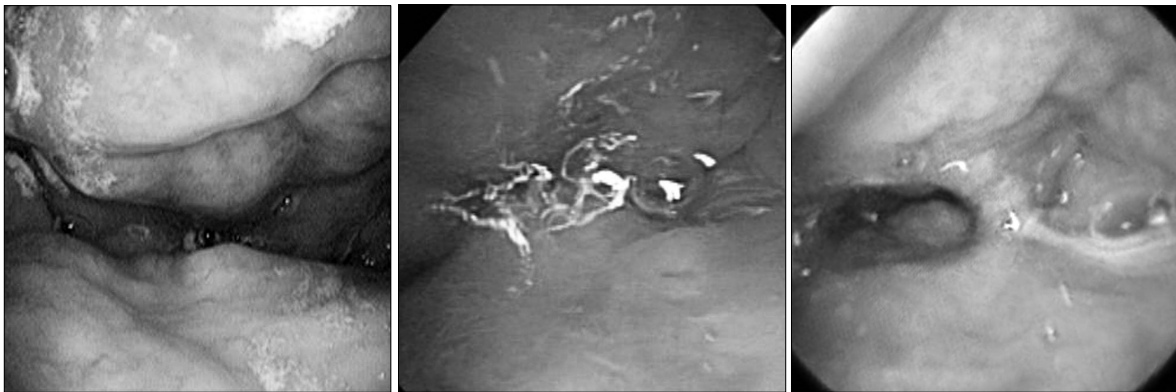


Fig. 2. Case 2. (Left) Preoperative nasoendoscopic view. (Center) Post-CPAP nasoendoscopic view. (Right) Follow up nasoendoscopic view 18 months after CPAP.

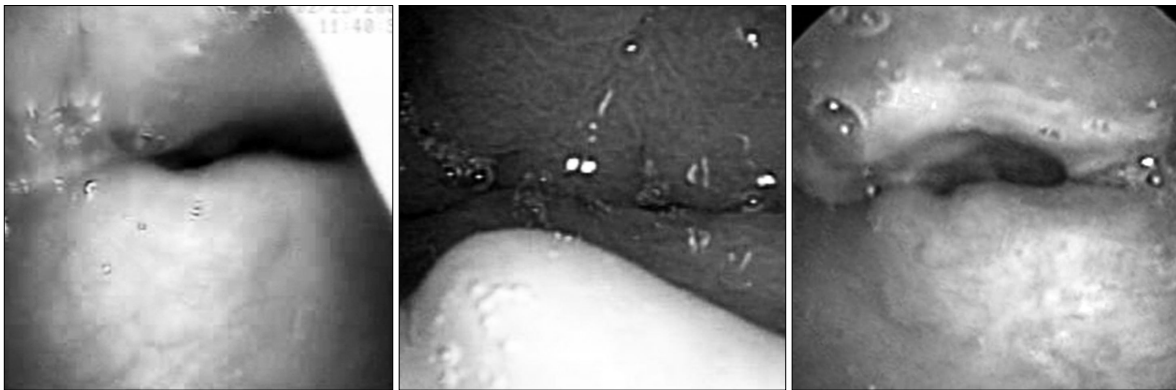


Fig. 3. Case 3. (Left) Preoperative nasoendoscopic view. (Center) Post-CPAP nasoendoscopic view. (Right) Follow up nasoendoscopic view 18 months after CPAP.

기는 2등급이었다(Fig. 2, Table III).

3) 증례 3

구개열로 13개월에 타 병원에서 구개성형술을 받은 10세 2개월의 남자 환아가 과다비성으로 내원하였다. 과다비성은 2등급이었고, 비강자음이 제외된 문단에서 비음치는 52%이었다. 비인두 내시경에서 대칭적 관상형태의 움직임 을 보였고, 구개범인두문의 간격 크기는 3등급이었다(Fig.

3). 환아는 10세 5개월에 구개연장술을 시행받았고, 수술 2개월 후 과다비성 1등급, 비음치 48%로 CPAP 치료를 시행 하였다. 시행 직후 과다비성 0등급, 비음치 11%, 비인두 내시경에서 1등급으로 정상 소견으로 호전되었다(Fig. 3). CPAP 치료 21개월 후 과다비성 0~1등급, 비음치 8%이었는데 이 때 비염으로 인해 왼쪽 코가 막혀 있었다. 비인두 내시경에서 2등급의 결과를 보였다(Fig. 3, Table III).

III. 고 찰

Kuehn²은 1991년 처음으로 과다비성을 보이는 6명의 환자에서 CPAP 치료를 고안하였고, 경증(Mild) 또는 중등도(Moderate)의 과다비성 환자에서 CPAP이 효과적일 것이라고 발표하였다. CPAP 치료는 코를 통해서 지속적인 공기압을 가해줌으로써 저항운동(resistance exercise)을 통해서 입천장을림근(levator veli palatini muscle)의 근력을 강화시켜준다. Keuhn⁷은 CPAP 치료 시에 비강 내 공기압을 증가시킴에 따라서 근전도검사(electromyography)에서 입천장을림근의 활성도가 증가함을 증명하였다. 2002년에는 43명의 구개열 환자에서 동일한 방법으로 과다비성을 치료하여 그 효용성을 보고하였다.³ 국내에서는 고경석 등⁴이 7명의 구개인두부전증 환자에서 Kuehn이 제시한 방법으로 CPAP을 사용하여 수술 후 경증과 중증도의 과다비성이 지속되는 환자에서 CPAP 치료가 효과적이라는 결론을 얻었다. 하지만 위 연구들에서는 지속성 양압 치료 직후의 결과만 논의되었고, 그 이후 추적관찰 결과에 대해서는 구체적으로 논의되지 않았다.

이번 연구에 포함된 3명의 환자들은 공통적으로 구개성형술을 받았으나 구개인두부전이 있어서 2차로 구개연장술을 받았다. 수술 후 경증의 과다비성이 지속되었고 이에 대해서 CPAP 치료를 시행하였다. 이 후 시행한 언어평가에서 과다비성이 호전되었고, 비인두 내시경에서 구개법인두문의 간격 크기가 줄어들었다. 특히 1명의 환자는 정상 소견을 보였다. 하지만 CPAP 시행 후 16~21개월 동안 추적관찰한 결과 과다비성이 다시 증가하였고, 비인두 내시경에서 구개법인두문의 간격 크기가 증가하는 경우도 있었다. 이에 대한 원인으로는 CPAP 치료를 통한 저항운동을 하는 동안에는 입천장을림근의 근력이 강화되어서 치료 직후에는 구개인두폐쇄가 잘 이루어지지만 시간이 지나면서 저항운동을 지속하지 않음으로써 다시 근력이 약화되기 때문일 것으로 생각된다. 일반적으로 근육은 운동을 통해서 근력 강화가 이루어지지만 지속적인 운동이 없을 경우 점차 근력이 약화된다. 이와 같은 현상이 입천장을림근에서 나타난 것으로 추정된다. 이를 확인하기 위해서는 CPAP 치료 직후와 추적관찰 후에 근전도검사를 통해서 근육의 활성도 비교하거나 MRI에서 근육 두께를 측정하는 등의 추가적인 연구가 필요할 것이다.

구개인두부전 환자에서 수술 후에 과다비성과 비누출이 완전히 없어져야 하지만 실제 임상에서 보면 그렇지 못한 경우가 있다. 과다비성이 지속되는 원인을 파악하는 것은 추후 치료방법을 계획하는데 중요하다. 우선 수술 시기나 술기의 부적합한 적용, 수술의 미숙 등으로 수술로써 구개

인두 부위의 해부학적 구조적 결함을 복원하는데 실패하는 경우가 있다. 이외에도 성문파열음, 인두마찰음 등의 보상조음(compensatory articulation)으로 인해서 구개인두부전이 나타나는 경우가 있다. Henningsson 등⁸은 구강에서 조음하지 않고, 성문에서 조음하는 경우 구개인두 부위의 해부학적, 구조적 결함이 없더라도 구개인두기능이 제대로 사용되지 않음을 증명하였다. 이와 같은 경우는 적절한 언어치료를 통해서 보상조음을 없앤 상태에서 구개인두기능 평가가 이루어져야 한다.

이번 연구에서 저자들은 수술 후 보상조음이 없이 과다비성이 지속되는 환자에서 CPAP 치료라는 행동치료(behavior therapy)를 선택하였다. 저자들의 임상적인 경험으로는 수술 후 지속되는 구개인두부전 환자 중 대부분은 CPAP 치료 후 과다비성이 호전되었고, 추적관찰 시 그 효과가 지속되었다. 하지만 일부의 환자에서는 CPAP 치료 후 과다비성이 호전되었으나 1년 이상의 추적관찰 한 결과 과다비성이 다시 악화되는 소견을 보여서 이를 보고하는 바이다. 앞으로 많은 환자를 대상으로 오랜 기간 추적관찰을 통해서 CPAP 치료 효과에 대한 자료 수집 및 분석이 필요하고 이를 기반으로 인두기능부전 환자에서 CPAP 치료의 적용 기준을 확립하는 것이 필요하다.

REFERENCES

- Peterson-Falzone SJ, Hardin-Jones MA, Karnell MP: *Cleft palate speech*. 4th ed, St. Louis, Missouri, Mosby, 2009, p 333
- Kuehn DP: New therapy for treating hypernasal speech using continuous positive airway pressure (CPAP). *Plast Reconstr Surg* 88: 959, 1991
- Kuehn DP, Imrey PB, Tomes L, Jones DL, O'Gara MM, Seaver EJ, Smith BE, Van Demark DR, Wachtel JM: Efficacy of continuous positive airway pressure for treatment of hypernasality. *Cleft Palate Craniofac J* 39: 267, 2002
- Kim KN, Koh KS, Jung SE, Ha SH, Park MK: Post-operative continuous positive airway pressure (CPAP) therapy in velopharyngeal insufficiency patient. *J Korean Cleft Palate-Craniofac Assoc* 11: 73, 2010
- Kuehn DP, Moon JB: Velopharyngeal closure force and levator veli palatini activation levels in varying phonetic contexts. *J Speech Lang Hear Res* 41: 51, 1998
- Henningsson G, Kuehn DP, Sell D, Sweeney T, Trost-Cardamone JE, Whitehill TL: Universal parameters for reporting speech outcomes in individuals with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J* 45: 1, 2008
- Kuehn DP, Moon JB, Folkins JW: Levator veli palatini muscle activity in relation to intranasal air pressure variation. *Cleft Palate Craniofac J* 30: 361, 1993
- Henningsson GE, Isberg AM: Velopharyngeal movement patterns in patients alternating between oral and glottal articulation: a clinical and cineradiographical study. *Cleft Palate J* 23: 1, 1986