

윤상피열관절과 후두신경을 동시에 침범하여 양측성대마비를 유발한 류마티스 관절염 1예

이화여자대학교 의과대학 이비인후과학교실
박윤희 · 김한수 · 정성민 · 정수연

= Abstract =

A Case of Bilateral Vocal Fold Paralysis Induced by Concurrent Rheumatoid Arthritis Involvement of Laryngeal Nerve and Cricoarytenoid Joint

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Ewha Womans University, School of Medicine, Seoul, Korea

Yun Hwi Park, Han Su Kim, Sung Min Jung and Soo Yeon Jung

Rheumatoid arthritis (RA) is a connective tissue disease involving the larynx in 30 % of the patients. Foreign body sensation, hoarseness, and cough are common symptoms in laryngeal involvement. An urgent tracheostomy is required when acute airway obstruction occurs in case of bilateral vocal fold paralysis. The most common cause of bilateral vocal fold paralysis in RA patients is a cricoarytenoid joint arthritis. Laryngeal nerve degeneration is rare cause of bilateral vocal fold paralysis in RA patients. In this case report, an emergent tracheostomy was performed on a 64-years-old male patient with acute dyspnea, and concurrent involvement of RA on laryngeal nerve and cricoarytenoid joint was revealed by laryngeal electromyography and histopathology. The vocal fold mobility was restored after 3-months medical treatment.

KEY WORDS : Rheumatoid arthritis · Vocal fold paralysis · Neuropathy · Cricoarytenoid joint.

서 론

양측 성대 운동장애(bilateral vocal cord paralysis)는 중추 신경이상, 후두신경이상, 윤상피열관절의 이상, 피열연골간 고정에 의해 발생하며 해당 이상은 종양(tumor), 신경학적 질환(neurologic disease), 결합조직질환(connective tissue disease), 반흔성 망상조직(cicatricial web), 윤상피열관절 탈구 등에 의해서 발생한다.^{1,2)}

결합조직질환의 후두 침범은 양측 성대 운동장애의 원인으로서는 흔하지 않으나 활동성 결합조직질환을 가진 환자에서는 30%에서 윤상피열관절 침범이 보고되고 있다.³⁾ 류마티스 관절염은 31% 이상에서 후두관절을 침범하는 것으로 보고

되었으며 직접 관절 침범 외에도 혈관염(vasculitis)에 의한 후두신경 및 미주신경의 신경병증, 염증성 육아조직으로 인한 압박 등에 의해 성대 운동장애를 일으킬 수 있다.^{4,5)} 이 중 가장 많이 발생하는 원인은 류마티스 관절염의 윤상피열관절 침범이고 이는 국내에도 몇 차례 보고된 바 있으나,^{6,7)} 류마티스 관절염에서 후두 신경 및 미주신경의 신경병증을 동시에 보인 양측 성대마비는 국내에서는 아직 보고된 예가 없다. 저자들은 후두 신경과 윤상피열 관절의 침범을 동시에 보이는 양측 성대 마비 1예를 경험하였으며 이를 보고하는 바이다.

증 례

64세 남자 환자가 4개월 전부터 시작된 호흡곤란을 주소로 내원하였다. 호흡곤란 이외에 쇠목소리를 호소하였으며 해당 증상은 1년 이상 지속되었다. 고혈압 외에는 진단받은 질환 없었으며 주 3회의 음주력과 20갑년의 흡연력을 가지고 있었다. 환자는 5년 전부터 우측 다리를 절었으며(limping gait) 2년 전부터 양손 떨림과(both hands intension tremor)과 수면 중 운동장애를 호소하고 있었다. 후두내시경 검사 소견에서 좌측

논문투고일 : 2016년 10월 20일
논문심사일 : 2016년 10월 20일
게재확정일 : 2016년 11월 4일
책임저자 : 정수연, 07985 서울 양천구 안양천로 1071
이화여자대학교 의과대학 이비인후과학교실
전화 : (02) 2650-5156 · 전송 : (02) 2648-5604
E-mail : paransooyeon@hanmail.net

성대의 완전마비, 우측 성대의 불완전마비 소견과 함께 우측 성대에 용종이 관찰되었으며(Fig. 1), 두경부 이학적 검사 상 다른 특이 소견은 없었다. 천명 및 호흡곤란 증상 심하여 내원 당일 응급 기관절개술을 시행하였다.

양측 성대마비 원인감별을 위해 혈액검사, 후두근전도(laryngeal electromyography), 경부전산화단층촬영, 뇌 자기공명영상촬영, 후두미세수술(laryngomicrosurgery)을 시행하였다. 후두근전도(laryngeal electromyography)상 양측 상후두신경(superior laryngeal nerve)과 되돌이후두신경(recurrent laryngeal nerve) 모두에서 불완전한 간섭양상을 보였으며 좌측 되돌이후두신경에서 양성예파가 관찰되었다. 뇌 MRI상 특이 소견 없었으며, 신경전도검사(Sensory-motor nerve conduction study), F파 검사(F wave study), H 반사 검사(H reflex study), 뇌파검사(Electroencephalogram) 시행하였으며 정상소견 보여 다른 신경학적 병변은 없는 것으로 판

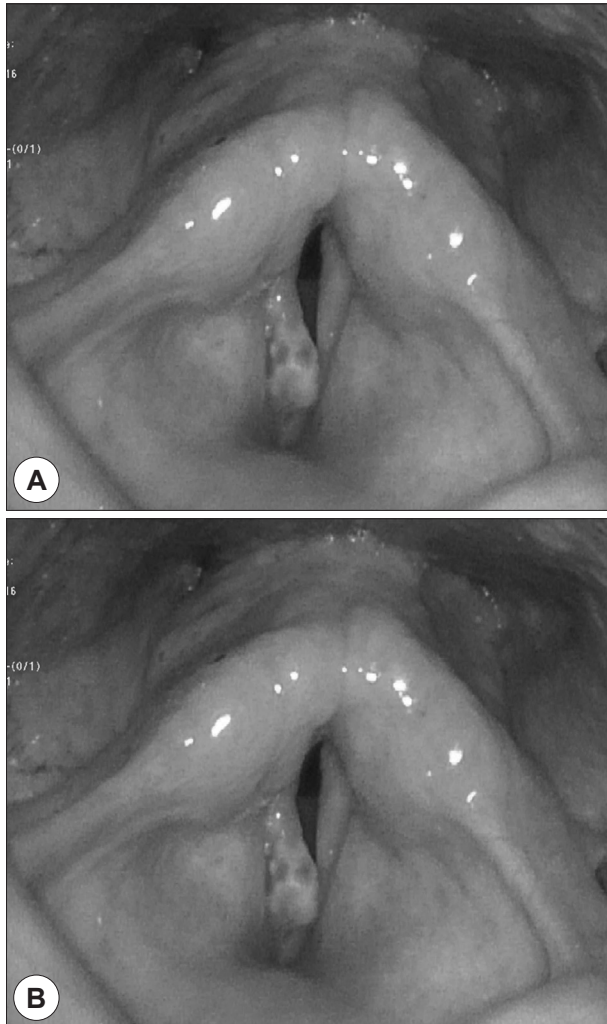


Figure 1. Pre-operative laryngoscopic evaluation. The bilateral vocal fold paralysis was observed with a polyp on left vocal fold. (A) Inspiration (B) Expiration.

명되었다. 따라서 후두근전도에서 진단된 양측 상후두신경 및 되돌이후두신경의 신경병증은 RA에 의한 양측 미주신경(vagus nerve) 병증에 의한 것으로 추정되었다.

경부전산화 단층촬영상에서 우측 성대에 7 mm 크기의 용종 이외의 특이사항은 관찰되지 않았으며 용종 제거 및 기도 확보, 관절부위 촉진 및 생검을 위해 현수후두경과 수술현미경을 이용하여 후두미세수술(laryngomicrosurgery)을 시행하였다. 미세수술기구를 이용한 피열연골촉진에서 좌측 윤상피열관절의 움직임 저하가 관찰되었으며 우측 윤상피열관절의 움직임은 정상이었다. 우측 용종을 제거하였으며 기도 확보 및 조직 생검의 목적으로 좌측 레이저 후방 성대절제술(LASER posterior cordectomy)을 시행하였다. 술 후 3일 째 호흡 안정되어 기관튜브 제거하였다. 술 후 조직병리검사 결과에서 좌측 윤상피열연골 주변 조직의 연골염(perichondritis) 소견이 관찰되었다(Fig. 2). 류마티스 내과 협진 시행하였으며 혈액검사상 류마티스 인자(rheumatoid factor, RF) 87 IU/mL, 적혈구 침강속도(ESR) 43 mm/hr, 정량적C reactive protein

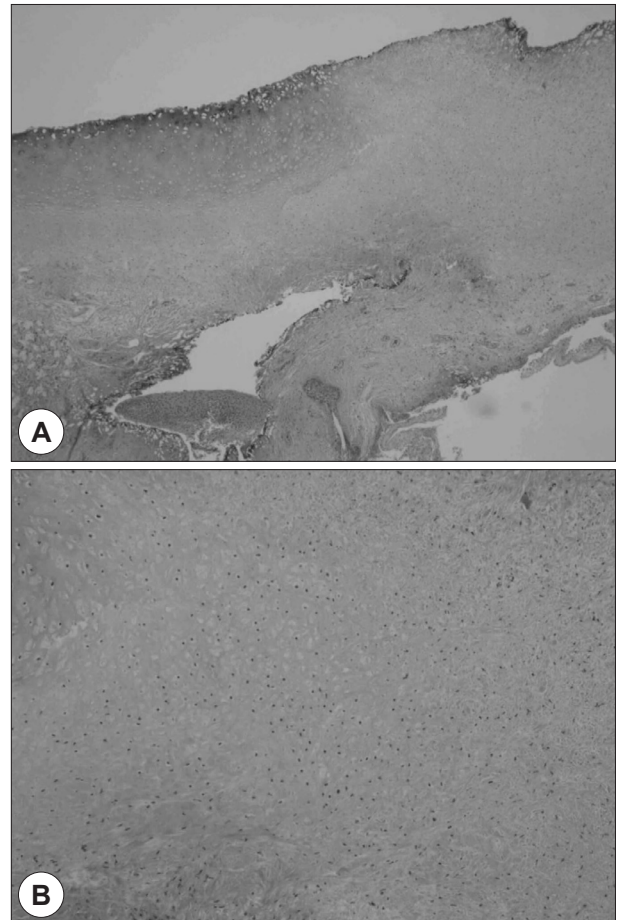


Figure 2. Histopathological finding of arytenoid cartilage. Scattered lymphocytic infiltrations were observed along the perichondrium and surrounding connective tissues [H&E stain, (A) $\times 40$, (B) $\times 100$].



Figure 3. Radiological findings. The multiple bony erosions(white arrow) were marked as arrows on radiological evaluation at (A) antero-posterior view of both hands, (B) antero-posterior view of both feet.

(CRP) 4.48 mg/dL로 증가된 소견 보였으며 anti cyclic citrullinated peptide(항CCP) 항체 양성이었다. 활형한 수부 방사선 검사에서 손과 발의 다발성 골 미란(multiple bony erosion)이 관찰되어 류마티스 관절염 진단 기준에 부합하여 류마티스 관절염으로 진단되었다(Fig. 3).

환자 sulfasalazine 500 mg 하루 2회, methotrexate 20 mg 주 1회, corticosteroid 15 mg 하루 1회 복용하였으며 투약 3개월 후 시행한 후두 내시경검사상 좌측 성대 움직임 회복을 확인하였다(Fig. 4).

고 찰

류마티스 관절염의 후두 침범은 1880년도에 Morell MacKenzie 처음으로 보고되었다.⁸⁾ 류마티스 관절염의 후두 침범 유병률은 남성보다 여성에서 더 높고⁹⁾ 후두경상에서 관찰되

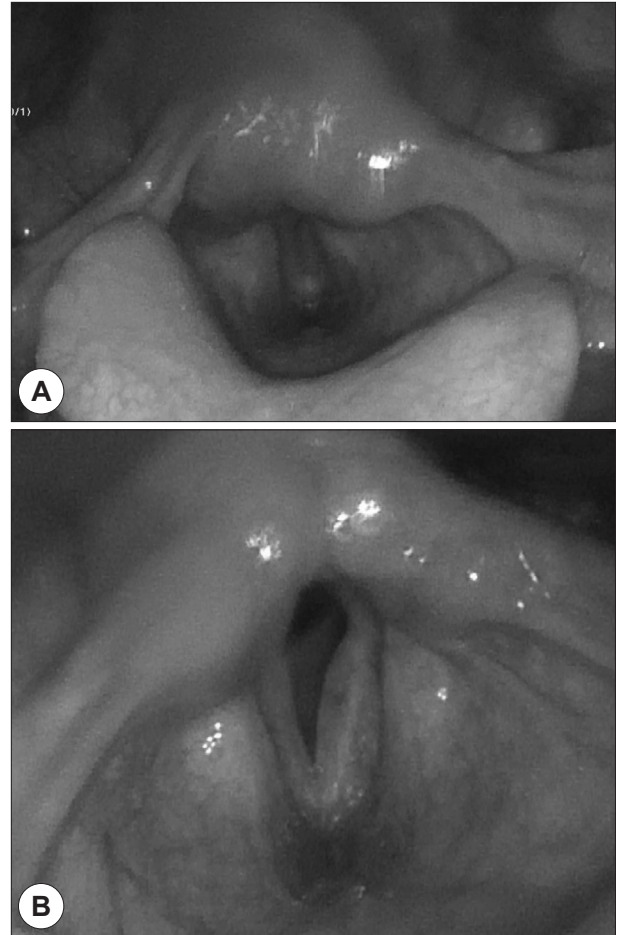


Figure 4. Laryngoscopic findings after 3-months medication. The vocal fold movement restored after 3-months medication. (A) Adduction (B) Abduction.

는 후두의 침범은 약 30~70%, CT에서 관찰되는 유병률은 약 50~70%이다.¹⁰⁾ 대부분 증상이 없으며 약 26%만이 증상을 호소한다.¹¹⁾ 후두 침범시 초기 증상은 목의 이물감으로 나타나 간과하기가 쉽다. 병변이 진행될 경우 애성, 기침, 연하곤란 등의 증상이 나타나며 심할 경우 호흡곤란을 일으켜 해당 경우에는 응급 기관절개술이 필요하다.¹¹⁾

류마티스 관절염에서 성대 마비를 유발하는 병태생리로는 윤상피열관절의 활액막(synovium)의 염증으로 인한 관절면의 섬유화, 류마티스 결절로 인한 성대근(vocalis muscle)이나 윤상피열 관절의 움직임 장애, 혈관염 및 후두 되돌이 신경과 미주 신경의 퇴화로 인한 신경병증, 경추뼈(cervical spine)의 류마티스 침범으로 인해 경수연수 압박(cervicomedullary compression) 등이 보고되었다.¹¹⁾ 치료는 스테로이드, 비스테로이드 항염제(nonsteroid anti-inflammatory), 항류마티스 약물 치료가 있으며 양측 성대마비가 발생한 경우에는 스테로이드 투여가 우선적 치료이며 투여방법으로는 전신적 투여와 국소 관절주사를 시행해 볼 수 있다.¹²⁾ 활동성 관절염의 진행을

막는데 사용되는 methotrexate는 단독용법이나 병합요법으로 사용된다.¹³⁾

류마티스 관절염에 의한 양측 성대마비는 주로 윤상피열 관절의 침범으로 발생하는 경우가 많으나, 본 증례에서는 류마티스 관절염을 진단 받기 전 호흡곤란을 주소로 내원하였으며 이후 시행한 후두근전도를 통해 신경병증이 진단되었으며 조직검사를 통해 피열연골막의 염증소견을 확인 함으로써, 류마티스 관절염에 의한 미주신경염과 윤상피열관절의 고정이 동시에 발생하여 결과적으로 양측성대마비가 나타난 것으로 판단할 수 있었다. 류마티스 관절염의 신경병증 유발로 인한 양측 성대마비는 1958년 Darke등에 의해 보고되었으나 이는 사후 부검으로 신경의 탈수초화 소견을 발견하였으며 임상적으로 신경병증을 진단한 사례보고는 현재까지 없다.¹⁴⁾ 성대마비환자에서 후두근전도는 관절 장애로 인한 성대의 고정(fixation)과 신경병증의 감별에 도움을 줄 수 있다.¹⁵⁾ 양측 성대마비 환자에서 후두근전도의 시행은 성대부종, 출혈 등으로 호흡곤란을 유발할 수 있어 기도 확보 후 검사시행을 고려할 수 있으며, 본 증례에서는 기관절개술 후 상태로 후두근전도를 시행하였다. 양측 후두 신경 모두 신경점증이 급격히 감소되어있고 양성예과의 발현이 신경과 전문의에 의해 확인되어 양측 후두신경병증으로 진단하였으나 조직검사 결과에서 류마티스관절염의 관절침범이 진단되었다. 양측성 성대마비 환자에서는 본 증례와 같은 류마티스 관절염 등 결체조직질환의 관절 침범 및 해당 질환의 신경병증 유발가능성을 배제하지 않고 철저한 병력 청취와 타과 협진을 통한 진단 노력이 필요하다.

중심 단어 : 류마티스 관절염 · 성대마비 · 신경병증 · 윤상피열 관절.

REFERENCES

- 1) Kim TW, Son YI. *Management Principles of Bilateral Vocal Fold Immobility. J Korean Society Laryngol Logopedics Phoniastics* 2009;20(2):118-25.
- 2) Sapundzhiev N, Lichtenberger G, Eckel HE. *Surgery of adult bilateral vocal fold paralysis in adduction: history and trends. Eur Arch Otorhinolaryngol* 2008;265:1501-14.
- 3) Papadimitraki ED, Kyrmizakis DE, Kritikos I, Boumpas DT. *Ear-nose-throat manifestations of autoimmune rheumatic diseases. Clin Exp Rheumatol* 2004;22(4):485-94.
- 4) Berjawi G, Uthman I, Mahfoud L, Husseini ST, Nassar J, Kotobi A, et al. *Cricothyroid joint abnormalities in patients with rheumatoid arthritis. J Voice* 2010;24(6):732-7.
- 5) Vikas A, Ram S, Wiclaf, Sandeep C. *A clinical, electrophysiological, and pathological study of neuropathy in rheumatoid arthritis. Clin Rheumatol* 2008;27:841-4.
- 6) Lee EJ, Joo YH, Kim JP, Woo SH. *A Case of Bilateral Vocal Cord Paralysis in a Patient with Rheumatoid Arthritis. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2011;54:235-8.
- 7) Ahn CM, Moon KJ, Kim HC. *Rheumatoid Arthritis of the Larynx: A Case Report. Korean J Otolaryngol* 2002;45:522-5.
- 8) MacKenzie M. *Disease of the pharynx, larynx, and trachea. 1st ed. New York: William Wood;1880. p.347.*
- 9) Jurik AG, Pedersen U. *Rheumatoid arthritis of the crico-arytenoid and crico-thyroid joints: a radiological and clinical study. Clin Radiol* 1984;35:233-6.
- 10) Lawry GV, Finerman ML, Hanafee WN, Mancuso AA, Fan PT, Bluestone R. *Laryngeal involvement in rheumatoid arthritis: a clinical, laryngoscopic, and computerized tomographic study. Arthritis Rheum* 1984;27:873-82.
- 11) Lofgren RH, Montgomery WW. *Incidence of laryngeal involvement in rheumatoid arthritis. N Engl J Med* 1962;267:193-95.
- 12) Simpson GT 2nd, Javaheri A, Janfaza P. *Acute cricoarytenoid arthritis: local periarticular steroid injection. Ann Otol Rhinol Laryngol* 1980;89(6 Pt 1):558-62.
- 13) Park SH. *Treatment of Rheumatoid Arthritis Guidelines. Korean J Intern Med* 2010;79(2):455-458.
- 14) Darke CS, Wolman L, Young A. *Laryngeal stridor in rheumatoid arthritis. Br Med J* 1958;1:1279-82.
- 15) Chung SM. *Laryngeal electromyography. J Korean Society Laryngol Logopedics Phoniastics* 2006;17(1):1-13.