



# Microlaryngobronchoscopy Without Tracheostomy in Large Subglottic Cyst Obliterating Airway

Sang Hyo Lee<sup>1</sup> , Hee Young Kim<sup>2,3</sup>, Minhyung Lee<sup>1</sup> , Jin-Choon Lee<sup>1</sup>, and Eui-Suk Sung<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, Pusan National University Yangsan Hospital, School of Medicine, Pusan National University and Research Institute for Convergence of Biomedical Science and Technology, Yangsan; and

<sup>2</sup>Department of Anesthesia and Pain Medicine, Pusan National University Yangsan Hospital, School of Medicine, Pusan National University, Yangsan; and

<sup>3</sup>Department of Anesthesia and Pain Medicine, School of Medicine, Pusan National University, Yangsan, Korea

## 기관절개술 없이 수술한 기관 폐쇄를 유발하는 큰 성문하부 낭종 1예

이상효<sup>1</sup> · 김희영<sup>2,3</sup> · 이민형<sup>1</sup> · 이진춘<sup>1</sup> · 성의숙<sup>1</sup>

<sup>1</sup>부산대학교 의과대학 양산부산대학교병원 이비인후과학교실, <sup>2</sup>부산대학교 의과대학 양산부산대학교병원 마취통증의학교실,

<sup>3</sup>부산대학교 의과대학 마취통증의학교실

**Received** February 17, 2022

**Revised** July 2, 2022

**Accepted** July 6, 2022

### Address for correspondence

Eui-Suk Sung, MD, PhD  
Department of Otolaryngology-  
Head and Neck Surgery,  
School of Medicine,  
Pusan National University,  
Pusan National University  
Yangsan Hospital,  
20 Geumo-ro, Mulgeum-eup,  
Yangsan 50612, Korea  
**Tel** +82-55-360-2654  
**Fax** +82-55-360-2162  
**E-mail** [sunges77@gmail.com](mailto:sunges77@gmail.com)

Extended endotracheal intubation in infancy causes various complications. Upper airway disruption is very rare but reversible cause of respiratory insufficiency. Tracheostomy may not be avoidable in severe upper respiratory tract lesions especially in large subglottic cysts and severe subglottic stenosis; however, avoiding it is a priority when possible. A 7-month-old child who had a history of newborn respiratory distress syndrome and extended endotracheal intubation developed respiratory symptoms including stridor. A subglottic cyst was found by bronchoscopy and surgically removed with the tubeless anesthesia technique without tracheostomy. This method was successful even on infants. We report this case with a review of literature.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(2):131-4

**Keywords** Airway obstruction; Subglottic cyst; Tracheostomy; Tubeless anesthesia.

## 서론

유소아에서의 장기간 기관 내 삽관은 후두기관의 다양한 후유증을 발생시킨다.<sup>1,2)</sup> 이 중 성문하부 낭종은 매우 드물지만 호흡 부전의 가역적인 원인 중의 하나이다.<sup>3-5)</sup> 상부 기관 폐쇄를 유발하는 큰 성문하부 낭종이나 심한 성문하부 협착 등의 질환을 해결하는 데 있어 기관절개술을 피할 수 없는 경우들이 종종 존재하나, 기관절개기의 유지에도 도관 및 개방

창의 소독 관리에 대한 노력과 부적절한 관리에 의한 창상감염 혹은 도관 폐색 등의 위험이 따르므로 가능한 피하는 것이 필요하다.<sup>2)</sup> 저자들은 신생아 호흡곤란 증후군으로 기관삽관의 병력이 있으나 안정되어 퇴원 후 증상 없이 지내던 중 상기도 폐쇄 증상이 발생하여, 이에 대한 평가 도중 발견된 기도를 폐쇄할 정도의 큰 성문하부 낭종에 대하여 기관절개술 없이 치료한 증례가 있어 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

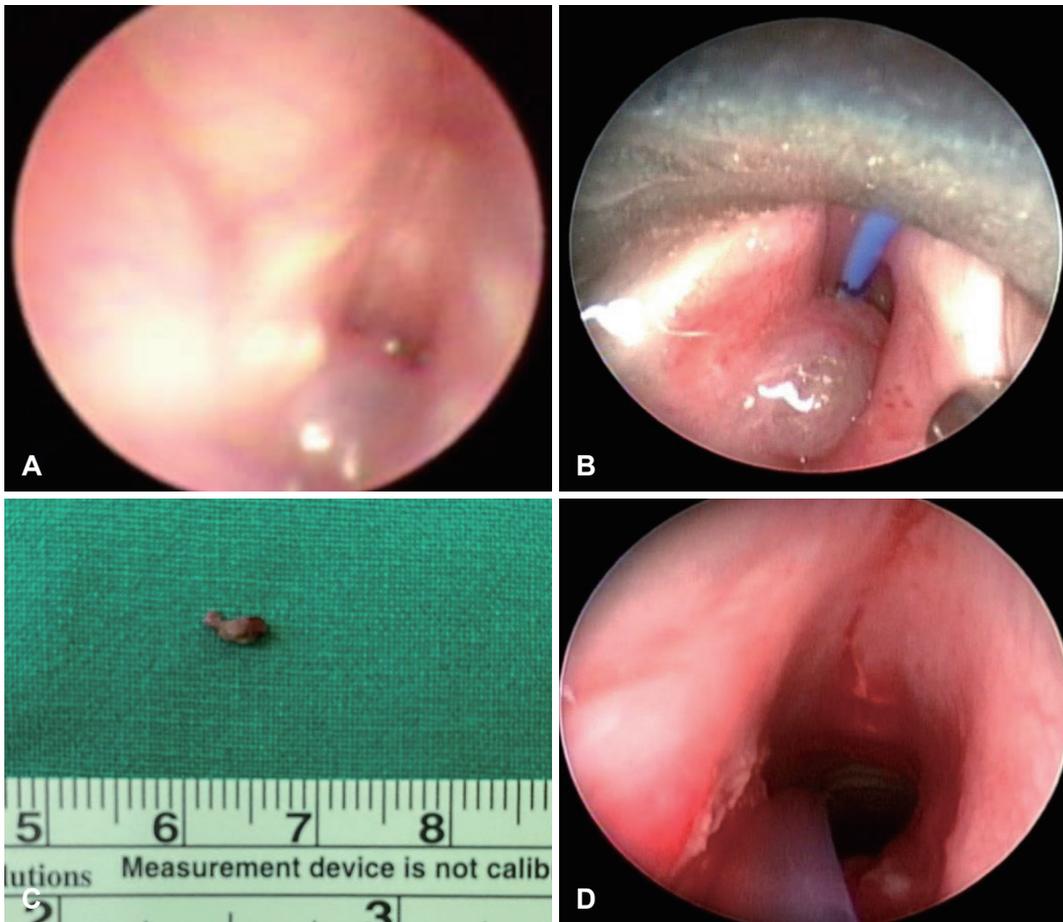
## 증례

생후 7개월 된 남아로, 주산기 태아절박가사 증상으로 29주

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

0일에 타원에서 제왕절개로 출생하여 신생아 호흡곤란 증후군으로 신생아 중환자실에서 치료하던 중 입원 3일째 발견된 복부 유리 공기(abdominal free air) 음영으로 괴사성 장염 의심하에 본원 전원되었고, 추가적인 선천성 회장 형성 부전, 위 천공, 서혜부 탈장 등이 확인되어 수차례 수술적 치료 시행 후 경과가 양호하여 교정 주수 4주(출생 4개월)차 퇴원하였다. 이후 외래 추적 도중 교정 주수 20주(출생 7개월)차 숨소리가 거칠고 가래가 있다 하여 외래 내원하여 시행한 단순 방사선촬영상 양측 폐의 약간의 음영 증가가 1주 이상 지속되는 것을 확인하였으며, 이에 크룹 의심하에 입원하여 평가하기로 결정하였다. 입원시 시행한 호흡기 바이러스 패널 검사 결과 전체 음성이었으며, 호흡기 치료 후에도 지속되는 이중 협착음(biphasic stridor)으로 후두 및 기도에 대한 평가를 위해 기관지내시경을 시행하였다. 기관지내시경상 성문하부의 대부분을 막고 있는 낭성 종괴가 관찰되어 내시경이 더 이상 진행하지 못하였으며(Fig. 1A), 이에 수술적 치료를 위해 이비인후과로 의뢰되었다. 종괴의 정확한 크기 및 범위 등 확인을 위하여 조영증강 흉부 기도 전산화단층촬영(CT chest airway

with contrast enhancement)을 시행하였으며, 성문하부의 좌후방에 2 mm 가량 기도의 반 이상을 폐쇄하는 낭성 종괴가 확인되었다. 삼관 실패 등 합병증을 고려하여 기관절개술을 권유하였고 보호자는 최대한 기관절개술을 하지 않기를 원했다. 호흡곤란이 있는 상황으로 수술적 조치가 필요하였고, 수술 중 기도 확보가 안정적이지 않다면 기관절개술을 시행할 것임을 고지하고 수술을 결정하였다. 수술 중 안정적인 호흡 유지를 위한 대체 요법을 고려하던 중 laryngeal mask airway를 삽입하였으나 수술 진행이 불가능하였고, 내경 3.0 mm의 기관 삼관 튜브(portex endotracheal tube)를 적용해 보았으나 수술에 방해가 되었다. 기관 삼관 튜브를 통해 6Fr의 영양관(gavage tube)을 기관 삼관 튜브 내관을 통해 추가로 삽입하여 기관(trachea) 내에 거치하였다. 기관 삼관 튜브는 기도 밖으로 제거하고 응급상황 시 재삼관을 위해 가이드 역할로 영양관을 기관에 거치하였다. 일회 호흡량 달성을 위해 자발 호흡에 더하여 고유량 비관 캐놀라를 통해 100% FiO<sub>2</sub>를 공급하며 영양관쪽으로 평균 분당 1-2 L의 산소를 추가로 공급하였다(Fig. 2). 수술 중 발견한 성문하부 낭종은 좌측의 성



**Fig. 1.** Gross findings. A: A cyst obliterating airway found on preoperative bronchoscopy. B: Intraoperative findings after suspension laryngoscope applied. C: Cyst specimen. D: After removing cyst and granulations around.



Fig. 2. Intraoperative oxygen supply.

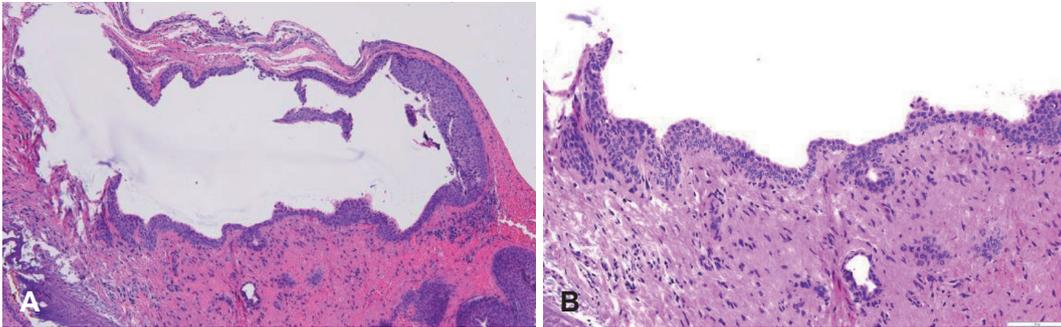


Fig. 3. Tissue pathology. A: Cystic lesion is identified in the submucosa (H&E stain,  $\times 100$ , bar length=200  $\mu\text{m}$ ). B: The cyst is lined by squamous epithelium, and consistent with ductal cyst (H&E stain,  $\times 200$ , bar length=100  $\mu\text{m}$ ). H&E, hematoxylin and eosin.

문하부, 즉 좌측 성대의 바로 아래쪽에 위치하고 있었으며, 기도 전체를 반 이상 폐쇄시킬 정도로 매우 컸다(Fig. 1B). CO<sub>2</sub> laser를 이용하여 전체를 제거하였다(Fig. 1C and D). 또한 주 종괴를 전후하여 낭성 종괴가 추가로 발견되어 함께 제거하였으며, 이후 잔여 종괴 및 출혈 없는 것을 확인하고 수술을 종료하였다. 병리조직검사 결과는 점막하 섬유조직에 동반된 편평상피조직으로, 편평상피로 둘러싸인 낭중에 합당한 소견이었다(Fig. 3). 수술 후 항생제, 위산역류억제제, 스테로이드를 처방과 함께 3일간 일반 병실에서 경과 관찰하였고 활력징후 및 호흡 양상이 양호하여 퇴원하였으며, 이후 술후 10개월차 추적 시까지 환부의 특별한 이상소견 없이 잘 유지되는 모습을 확인하였다.

## 고 찰

성문하부 낭종은 유소아에서 기도 폐색을 일으키는 드문 원인으로 알려져 있으나, 1967년 최초 보고된 이후 의학과 기술의 발달에 따른 미숙아의 생존율 및 성문하부 낭종의 진단율 증가에 힘입어 그 보고가 지속적으로 증가해 왔다.<sup>3,6,7)</sup>

호흡기 천명(stridor)이 흔하게 나타나는 증상이나, 호흡기 폐색을 일으키는 후두연화증, 성대마비 등 타 질환과의 감별이 필요한 부분이므로 최초 진료 시 성문하부 낭종을 의심하는 것은 쉽지 않으며, 일부 영상학적 검사들이 도움이 될 수는 있으나, 정확한 진단은 내시경을 통해 확인하는 것이다.<sup>3,8,9)</sup> 이중 협착음(biphase stridor) 외에도 저산소 발작(cyanotic spells), 반복되는 무호흡, 섭식 장애가 흔히 동반되는 것으로 알려져 있다.<sup>8,9)</sup>

미숙아에서의 성문하부 낭종은 기관 내 삽관과의 높은 연관성이 보고되어 있는데, 이는 장기간 삽관과도 연관이 있으나 24시간 이내의 짧은 삽관에서도 발생할 수 있음이 보고된 바 있다.<sup>5,10,11)</sup> 특히 본 증례와 같이 30주 미만의 미숙아의 경우 폐 발달의 미숙으로 인한 폐 표면 활성제의 생성 및 분비 부족에 의한 신생아 호흡곤란 증후군의 치료가 매우 중요하기 때문에, 비록 저침습 폐 표면 활성제 투여 기법이 시도되고 있음에도 불구하고 기계호흡의 필요로 인한 기관 내 삽관을 완전히 피하기는 어렵다.<sup>12)</sup> 기관 내 삽관과 연관된 성문하부 낭종의 발생은 삽관 시 또는 기관 내관의 유지 도중 발생하는 기도 점막의 직접 손상 및 궤양과 이에 따르는 상피화생 및 상피하

섬유화에 의한 점막 분비샘 폐색으로 발생하는 점액 저류에 의한 것으로 생각된다.<sup>8)</sup> 본 증례도 여러 차례 전신마취를 위한 기관 삽관으로 인해 기도점막 손상 및 궤양에 따른 점액 저류로 성문하 낭종이 발생했을 것으로 사료된다.

유소아의 성문하부 낭종의 표준 치료법은 조대술(marsupialization)로 간주되나<sup>10,11)</sup> 작은 유소아의 경우 좁은 기도로 인해 적절히 처치되기 어려우며, 이에 따른 재발 위험이 존재한다.<sup>3,4)</sup> 따라서 낭종 벽의 제거와 그 내용물 배출을 목표로 해야 한다.<sup>9)</sup> 적절한 결과를 얻기 위한 방법으로 cold steel microinstrument, microdebrider, CO<sub>2</sub> laser 등을 이용하는 방법이 있다.<sup>4,5,8,10,11)</sup> 본 증례에서는 주 종괴에서는 그 성상이 매우 단단하고 점막 기저면에서 잘 분리되지 않아 CO<sub>2</sub> laser를 이용하여 제거하였다.

CO<sub>2</sub> laser의 사용 시 산소에 의한 발화 사고가 발생할 수 있으므로 이를 방지하기 위하여 레이저 사용 전 고유량 비강 캐놀라 및 기관 내 추가도관을 통한 산소 공급은 잠시 중단하였다. 약 1분간의 중단에도 환자의 흉부 움직임을 통해 자발호흡 양호함이 확인되며 경피적 산소 포화도 감소상 저산소증이 보이지 않아 수술 진행에 문제는 없었다.<sup>13)</sup>

좁은 기관으로 인해 충분한 환기량과 수술시야 확보가 어려운 큰 성문하부 낭종의 경우 안정적인 수술을 위한 기관절개술이 일반적이나, 본 증례에서는 고유량 비강 캐놀라 산소요법(high flow nasal cannula oxygen therapy)에 더하여 작은 내경의 보조 도관인 영양관(6Fr gavage tube)을 사용하여 기관 분지부에 산소를 추가로 투여함<sup>14,15)</sup>으로서 산소 포화도와 호기말 기도양압을 유지하여 안정적으로 수술적 치료를 시행할 수 있었다. 이러한 방식으로 마취를 유지하는 경우 호기말 이산화탄소 농도의 측정에 제한이 있으며 이에 따른 기도내 이산화탄소 청소율을 판단하기 어렵다는 단점이 있으며, 이는 장시간의 마취 유지에 있어 어려움이 될 수 있다. 이러한 경우 호흡기 환자에서 적용하는 경피적 이산화탄소 분압 측정장치를 사용하여 도움을 받을 수 있다. 본 증례는 기저력 없는 환자의 짧은 시간의 수술로서 이산화탄소 분압 모니터링은 필요치 않을 것으로 판단되었다. 이에 적응증이 될 경우 성문하부 낭종의 수술에 있어 고유량 비강 캐놀라 산소요법 적용을 고려해볼 수 있을 것으로 사료된다.

**Acknowledgments**

None

**Author Contribution**

Conceptualization: Jin-Choon Lee, Eui-Suk Sung. Data curation: Hee Young Kim. Formal analysis: Minhyung Lee, Eui-Suk Sung. Investigation: Eui-Suk Sung. Methodology: Hee Young Kim. Resources: Jin-Choon Lee, Eui-Suk Sung. Supervision: Eui-Suk Sung. Writing—original draft: Sang Hyo Lee. Writing—review & editing: Eui-Suk Sung.

**ORCID**s

Sang Hyo Lee <https://orcid.org/0000-0003-3393-2800>  
 Minhyung Lee <https://orcid.org/0000-0002-4038-1667>  
 Eui-Suk Sung <https://orcid.org/0000-0001-8752-3426>

**REFERENCES**

- 1) Lambercy K, Pincet L, Sandu K. Intubation related laryngeal injuries in pediatric population. *Front Pediatr* 2021;9:594832.
- 2) Marston AP, White DR. Subglottic stenosis. *Clin Perinatol* 2018; 45(4):787-804.
- 3) See GB, Mesran I. Stridor secondary to acquired subglottic cyst: Rarity makes it missed. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg* 2019; 71(Suppl 1):45-8.
- 4) Lim J, Hellier W, Harcourt J, Leighton S, Albert D. Subglottic cysts: The Great Ormond Street experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67(5):461-5.
- 5) Asha'ari ZA, Suhaimi Y, Fadzil A, Zihni M. Infant with a sudden, large, post-extubation subglottic cyst. *Malays J Med Sci* 2012; 19(4):84-7.
- 6) Watson GJ, Malik TH, Khan NA, Sheehan PZ, Rothera MP. Acquired paediatric subglottic cysts: A series from Manchester. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2007;71(4):533-8.
- 7) Wigger HJ, Tang P. Fatal laryngeal obstruction by iatrogenic subglottic cyst. *J Pediatr* 1968;72(6):815-20.
- 8) Smith JD, Cotton R, Meyer CM 3rd. Subglottic cysts in the premature infant. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1990;116(4):479-82.
- 9) Reed JM, Myer CM 3rd. Radiographic evaluation of a subglottic cyst in an infant. *Am J Otolaryngol* 1995;16(5):329-30.
- 10) Bauman NM, Benjamin B. Subglottic ductal cysts in the preterm infant: Association with laryngeal intubation trauma. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1995;104(12):963-8.
- 11) Smith SP, Berkowitz RG, Phelan PD. Acquired subglottic cysts in infancy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;120(9):921-4.
- 12) Klebermass-Schrehof K, Wald M, Schwindt J, Grill A, Prusa AR, Haiden N, et al. Less invasive surfactant administration in extremely preterm infants: Impact on mortality and morbidity. *Neonatology* 2013;103(4):252-8.
- 13) Richards SD, Kaushik V, Rothera MP, Walker R. A tubeless anaesthetic technique for paediatric laryngeal laser surgery. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2005;69(4):513-6.
- 14) Pearson KL, McGuire BE. Anaesthesia for laryngo-tracheal surgery, including tubeless field techniques. *BJA Educ* 2017;17(7):242-8.
- 15) Cha H, Lee DY, Kim EH, Lee JH, Jang YE, Kim HS, et al. Feasibility of surgical treatment for laryngomalacia using the spontaneous respiration technique. *Clin Exp Otorhinolaryngol* 2021;14(4):414-23.