



Supraglottoplasty in Congenital Laryngomalacia Patient Without Tracheostomy

Dong-Jo Kim¹, Minhyung Lee¹, Jin-Choon Lee¹, and Eui-Suk Sung¹

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine, Pusan National University and Research Institute for Convergence of Biomedical Science and Technology, Pusan National University Yangsan Hospital, Yangsan, Korea

선천성 후두 연화증 환자에서 기관절개술 없이 시행한 성문상부성형술

김동조 · 이민형 · 이진춘 · 성의숙

부산대학교 의과대학 이비인후과학교실, 양산부산대학교병원 이비인후과

Received May 12, 2022

Revised February 17, 2023

Accepted February 27, 2023

Address for correspondence

Eui-Suk Sung, MD, PhD
Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, College of Medicine, Pusan National University and Research Institute for Convergence of Biomedical Science and Technology, 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

Laryngomalacia is the most common congenital anomaly of the larynx in neonates. This supraglottic obstruction leads to increased work of breathing and stridor. The most common associated symptoms are swallowing dysfunction, regurgitation, cough, and sleep-disordered breathing. Spontaneous improvement usually occurs over a period of 12 months to 2 years although the majority of cases of laryngomalacia begins its course without any long-term sequel. Despite its benign characteristics, 10% of cases require intervention. Nowadays, the treatment consists of either wait-and-see or surgery. For severe laryngomalacia, supraglottoplasty has become the mainstay of surgical management. In this study, we report 3 cases of laryngomalacia in neonates, where patients underwent supraglottoplasty using the carbon dioxide laser without tracheostomy under conventional ventilation.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2023;66(10):697-701

Keywords Congenital; CO2 laser; Laryngomalacia; Supraglottoplasty

서론

선천성 후두 연화증은 신생아에서 천명음을 유발하는 가장 흔한 원인이며, 선천성 후두 기형의 50%~75%를 차지하는 질환이다.¹⁾ 대표적인 증상으로는 천명음, 활동시 발생하는 호흡곤란, 그리고 폐쇄성 수면무호흡과 발성장애 등이 나타날 수 있는데, 이는 생후 수 주 이내에 발생하고 4-8개월경 최고치에 이르며 2세경 자연회전되는 경과를 보이는 경우가 많다.²⁾ 만성 호흡곤란, 수유장애, 성장장애를 동반하는 중증도의 선천성 후두 연화증 환자는 수술이 필요하다.³⁾ 특히 수술

이 필요한 환자의 경우 후두 연화증의 형태를 정확히 확인하고, 적절한 수술기법을 적용하는 것이 중요하다. 성문 상부에 대한 다양한 수술 기법이 소개되기 이전에는 수술이 필요한 대부분의 후두 연화증 환자에게 기관절개술이 적용되었다. 레이저 현미경 미세수술법을 이용한 성문상부성형술이 도입된 이후 적응증이 되는 후두 연화증 환자에게 기관절개술 없이 치료를 시행할 수 있게 되었다. 저자들은 최근 기관삽관 상태에서 기관절개술 없이 성문상부성형술을 시행한 중증 후두 연화증 3예를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

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.

증례

증례 1

환아는 타 병원 산부인과에서 38주 5일에 제왕절개를 통해 출생하였다. 출생 당시 체중은 2720 g이었다. 출생 당시에 활동은 양호하였으나 울거나 수유 시 산소포화도 저하가 동반되며 호흡 시 흉부함몰소견을 보여, 본원 소아과 신생아 중환자실에 입원하였다. 동반질환으로 경증의 심방 중격 결손이 있었다. 생후 8일 시행한 기관지내시경 검사상 선천성 후두연화증 I형 소견을 보여 생후 10일 이비인후과에 협진 의뢰되었다(Fig. 1A). 굴곡형 내시경 검사상 피열부의 부종 및 후두개의 비후가 관찰되었다. 이 외 성대마비나 성문하 협착 등의 비정상적인 소견은 없었다. 본원 입원 중에도 울거나 수유 시 산소포화도 저하가 지속되어 전신마취하에 상후두부 성형술을 결정하였다. 생후 26일 전신마취하, 기관 삽관 후 현수 후두경을 통해 성문상부성형술을 시행하였다. 피열연골의 설상연골(cueniform cartilage) 주변의 비후 점막을 미세 검자

로 잡고 후방 중앙 쪽으로 당겨준 뒤, CO2 레이저를 이용하여 제거하였다. 이후 피열후두개주름(aryepiglottic fold) 주변의 비후 점막을 절개하고, 후두개와 후두개곡 사이를 기화(vaporization) 시켰다(Fig. 1B and C). 수술 후 성문 상부의 기도가 수술 전과 비교시 넓어진 소견을 보였으며, 기관 삽관을 유지한 상태로 수술을 종료했다. 술후 2일 발관하였으나 흉부 함몰을 동반한 산소포화도 수치 저하가 확인되어 기관 삽관을 다시 시행하였다. 술후 6일 다시 발관하였고 비강캐놀라를 이용한 산소공급하 산소포화도가 양호하게 유지되어 일반병동으로 전동하였고, 산소공급량이 점진적으로 감량하였으며, 술후 10일 자발 호흡 시 호흡곤란, 흉부 함몰, 천명 등의 이상소견이 없고, 산소포화도 유지가 양호하여 퇴원하였다. 퇴원 2주 후 소아이비인후과 외래에서 시행한 후두경 검사상 수술부위의 재협착을 포함한 합병증 없이 기도 유지가 잘 되었고 호흡 장애도 없어 주기적 경과 관찰 중이다(Fig. 1D). 수술 전 주관적인 수유 곤란이 있었으며 수술 당일(생후 26일) 체중 2800 g (하위 10%), 키 48 cm (하위

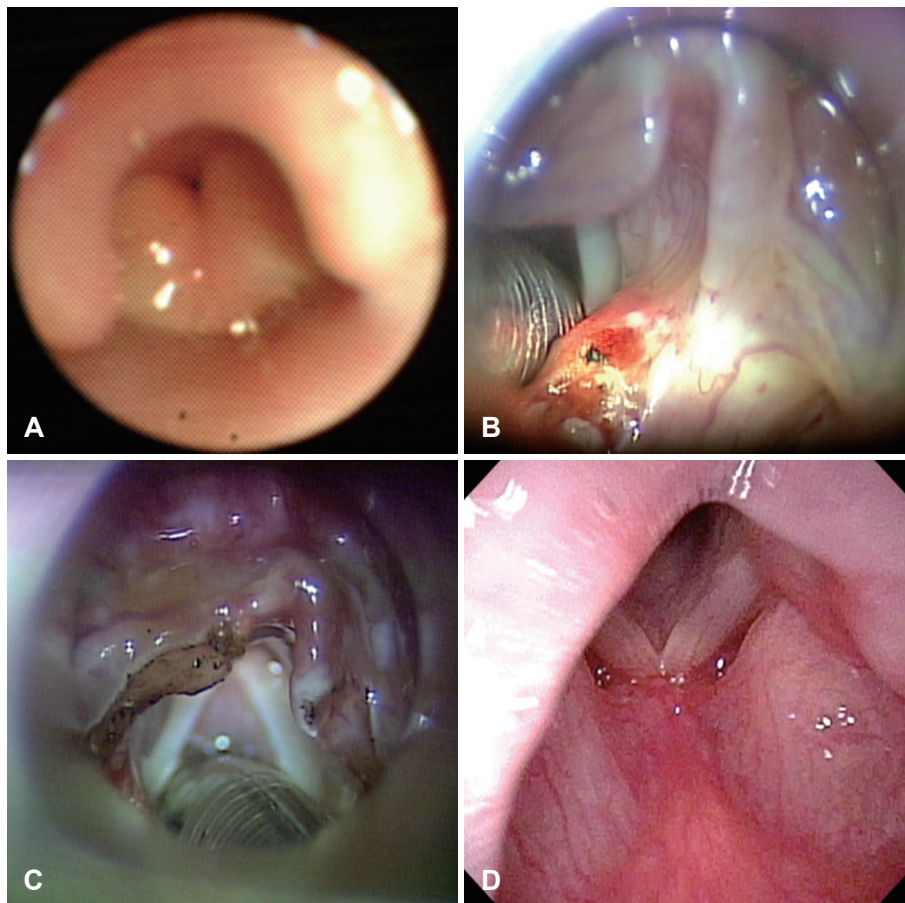


Fig. 1. Endoscopic images of pre-/intra-/post-operative laryngomalacia. A: Pre-operative bronchoscopy showed shortened aryepiglottic folds and redundant arytenoid mucosa. B: Microscopic image of larynx during supraglottoplasty using CO2 laser. The aryepiglottic folds have been divided. C: Microscopic image of larynx after supraglottoplasty using CO2 laser. The redundant arytenoid mucosa was reduced by CO2 laser and the epiglottis was displaced forward. D: After 6 months, laryngoscopic images show stable and patent airway.

15%)였으나, 수술 후(생후 72일) 체중 5900 g (하위 25%), 키 59.6 cm (하위 15%)로 측정되어 의미있는 체중의 증가가 확인되었으며 주관적인 수유 곤란 증상도 호전되었다.

증례 2

환아는 타 병원 산부인과에서 36주 4일에 제왕절개를 통해 출생하였다. 출생 당시 체중은 1950 g이었다. 출생 당시에 호흡 시 흉부함몰소견을 보여, 본원 소아과 신생아 중환자실에 입원하였다. 입원 시 시행한 흉부엑스선검사상 양측 쇄골 골절 소견을 보였으며, 동반질환으로 동맥관 개존증이 있었다. 생후 2일 발관 후 고유량산소요법(5 L/40%)을 적용하였으나 산소 공급량 감소 시 호흡곤란이 지속되고 경구 수유 시 호흡곤란이 악화되는 모습을 보여 생후 67일 이비인후과에 협진 의뢰되었다. 굴곡형 내시경 검사상 피열부 점막의 비후와 오메가 모양 후두개가 관찰되었으며 호흡 시 흉곽 함몰이 관찰되었다. 이 외 성대 마비나 성문하 협착 등의 비정상적인 소견은 없었다. 소아청소년과에서 기관 절개술 시행을 의뢰하였으며 본과 진료 후 성문상부성형술을 시행하기로 하였다. 생후 73일 전신마취하, 기관 삽관 후 현수 후두경을 통해 CO2 레이저 성문상부성형술을 시행하였다. 수술방법은 앞의 증례와 동일하였다. 술후 6일 발관 이후 호흡이 양호하였으며 퇴원 2주 후에 시행한 후두경 검사상 합병증 없이 기도 유지가 잘 되었고 호흡이 양호하여 주기적 경과 관찰 중이다. 수술 전 수유장애를 호소하며 성장장애가 동반되었던 환아, 수술 이후 수유장애가 호전되었으나 성장장애는 지속되었다.

증례 3

환아는 본원 산부인과에서 37주 6일에 제왕절개를 통해 출생하였다. 출생 당시 체중은 2010 g이었다. 출생 당시에 활동 및 호흡은 양호하였으나 산전 검사상 난월공 개존증이 확인되어 평가를 위해 신생아집중치료실로 입원하였다. 유전자 검사상 Trisomy 9 증후군으로 진단되었고, 선천성 항문 폐쇄증이 동반되어 생후 5일 항문성형술을 시행하였다. 입원 중 경구 수유가 원활하지 않아 경구수유재활치료 및 수유 연습 후 경구 수유가 가능하여 생후 22일 퇴원하였다. 그러나 퇴원 이후 경구수유불량이 악화되어 생후 37일 소아청소년과로 재입원하게 되었고, 생후 40일 시행한 기관지내시경 검사상 선천성 후두 연화증 I형과 III형 소견이 확인되어 이비인후과에 협진 의뢰되었다. 굴곡형 내시경 검사상 피열부 점막의 비후와 오메가 모양 후두개가 관찰되었으나 성대 마비나 성문하 협착 등의 비정상적인 소견이 없고 호흡곤란이나 수유장애가 경미한 상태로, 경과 관찰하기로 했다. 그러나 이후 흡기 시 천명 악화되며 수유 시 호흡곤란 악화로 산소포화도 저하

가 반복되어 생후 52일 전신마취하 기관 삽관 후 현수 후두경을 통해 성문상부성형술을 시행하였다. 수술 방법은 앞의 증례와 동일하였다. 수술 후 성문 상부의 기도가 수술 전과 비교 시 넓어진 소견을 보였으며, 앞의 증례와 동일하게 기관 삽관을 유지한 상태로 수술을 종료하였다. 술후 1일째 발관 시도하였고 비강 캐놀라를 이용한 고유량산소요법(6 L/35%) 적용 시 산소포화도가 양호하게 유지되어 산소 공급량을 점진적으로 감량 시도하였다. 술후 6일 산소공급 없이 자발 호흡이 양호했으며 술후 10일 퇴원하였다. 퇴원 2주 후 시행한 후두경 검사상 합병증 없이 기도 유지가 잘 되었고 호흡이 양호하여 주기적 경과 관찰 중이다. 수술 전 수유장애를 호소하며 성장장애가 동반되었던 환아, 수술 이후 수유장애가 호전되었고 성장장애가 일부 호전되었다.

고 찰

후두 연화증은 선천성 후두 질환 중 가장 흔한 질환으로 후두 골격을 구성하는 연골의 미성숙, 후두 골격을 유지하는 신경-근육 조절의 이상으로 인한 성문 상부의 함몰(collapse) 등이 원인으로 알려져 있으나 아직 명확하게 밝혀진 것이 없다.^{4,5)} 가장 흔한 증상은 울거나 수유 시 심해지는 호흡곤란, 양와위 자세에서 악화되는 흡기성 협착음이며, 대부분 1-2세 사이에 자연 호전된다. 그러나 심한 호흡곤란, 수유장애, 성장장애, 흉부 함몰 등의 증상을 동반한 중증의 후두 연화증 환자에게는 수술적 치료가 필요하다.^{6,7)} 1984년 Lane 등⁴⁾에 의해 최초로 성문상부성형술이 소개되기 이전에는 기관절개술이 후두 연화증의 전통적인 수술적 치료법이었다. Lane 등⁴⁾은 미세 기구를 이용하여 성문상부성형술을 시행하였으며, Seid 등⁸⁾은 CO2 레이저를 이용하여 피열 후두개 주름의 절개술을 시행하였다. 오메가 모양의 후두개에서 매우 짙어진 피열후두개주름 부위를 미세기구 및 CO2 레이저를 이용하여 잘라냄으로써 후두개가 정상 위치로 돌아오게 하는 술식이었다. CO2 레이저를 이용한 수술은 작동이 쉽고 수술시간이 짧으며 정확도가 높고 출혈이 거의 없다는 장점이 있다.⁹⁾ 저자들의 경우 피열 연골의 설상 연골 주변의 비후 점막을 미세 점자로 잡고, 후방 중앙 쪽으로 당겨준 뒤, CO2 레이저를 이용하여 제거하였다. 이후 피열후두개주름 주변의 비후 점막을 CO2 레이저를 이용하여 절개하고, 후두개와 후두개곡 사이를 CO2 레이저를 이용하여 기화시킴으로써, 섬유화를 통한 반흔 구축을 유도하여 후두개의 전방 전위를 유지시킬 수 있었다. Seid 등⁸⁾이 최초 시도한 성문 상부 성형술과 비교 시, 저자들의 경우 피열후두개주름의 절개와 더불어 설상 연골 주변의 비후 점막 제거, 후두개와 후두개곡 사이의 기화를 통한

섬유화 과정 등을 추가함으로써 더욱 견고하게 성문 상부의 구조를 유지할 수 있었다. 피열후두개주름의 단축과 피열 연골 조직의 비후가 있는 후두 연화증 환자에서 상기 수술 방법을 시행하면 상후두 입구부가 넓어져 빠른 증상의 호전을 기대할 수 있다. 흡기 시 후방으로 후두개가 전위되어 기도를 폐쇄하는 환자의 경우 후두개 고정술(epiglottopexy)이 효과적인 치료 방법이 될 수 있다.¹⁰⁾ 성문상부성형술의 발전으로 기관절개술은 과거에 비해 빈번하게 적용되지는 않으나 성문상부성형술이 실패한 환아에게는 기도 유지를 위해 필요하다. 그러나 기관절개술은 출혈, 식도기관루, 기관절개관의 발관과 폐색 등의 합병증이 43%~77% 환아에서 발생한다.²⁾ 선천성 후두 연화증 환아에서 생후 12-24개월에도 증상 호전이 없거나 성장장애, 수유곤란, 중증 호흡곤란, 상기도 협착 등의 증상이 동반되면 성문상부성형술이나 기관절개술을 고려해 볼 수 있다.³⁾ 기관절개술과 성문상부성형술의 선택에 대해서는 환자의 해부학적 구조를 고려해야 한다. 호흡곤란의 원인이 피열 연골과 후두개 주위의 점막 비후, 짧은 피열 후두개 주름, 흡기시 후두개의 후방전위와 같이 성문 상부에 국한되어 성문상부성형술 시행으로 좋은 결과를 기대할 수 있다면 성문상부성형술을 적용할 수 있다.¹¹⁾ 여러 대규모 대조군 연구에서 성문상부성형술 후 증상의 완전 호전과 심각한 증상의 경감을 달성한 성공률은 50%~95% 정도로 확인된다.²⁾ Preciado와 Zalzal¹²⁾의 연구에 따르면, 선천성 후두 연화증 환아에서 수술의 실패에 영향을 미치는 가장 중요한 인자는 신경학적 결손과 심장질환, 그리고 중증 gastroesophageal reflux disease (GERD)이다. 수술 후 환아에서 지속적인 호흡곤란과 수유 곤란이 관찰되기도 하며, 특히 조산아나 신경학적 결손이 동반된 환아에서 더 많이 발생한다.¹³⁾

선천성 후두 연화증 환자에게 수술적 치료가 주된 치료이지만 다양한 대체 치료법이 연구되고 있다. Faria와 Behar¹⁴⁾가 선천성 후두 연화증 환아 17명을 대상으로 한 연구에서 위산 분비 억제와 함께 고열량 식이, 연하 치료를 시행하였다. 체중증가는 성장장애의 호전을 의미하는데, 이는 선천성 후두 연화증의 호전 상태를 판단하는 가장 중요한 지표 중 하나이며 해당 연구 결과 16명의 환아에서 의미있는 체중증가가 확인되었으며 수개월 후 후두 연화증이 호전되었다. 양압기 치료가 수면무호흡이나 호흡곤란 증상을 호전시키는데 도움이 될 수 있으며, 이는 수술 대기중인 환아나 수술 적응증이 되지 않는 환아 그리고 성문상부성형술에 실패한 환아에게 적용해 볼 수 있다.¹⁵⁾

결과적으로 후두 연화증은 신생아에서 발생하는 가장 흔한 선천성 후두질환으로 대부분 경과 관찰만으로 호전되어 수술적 치료가 필요없지만 중증 후두 연화증 환아는 수술을

필요로 한다. 이 경우 레이저를 이용한 후두미세수술을 통해 안전하고 정확한 수술을 시행할 수 있다. 본 증례를 통해 기관절개술을 하지 않고, 기관 삽관하에 CO2 레이저와 후두미세수술기구를 이용하여 술후 합병증 없이 성문 상부 성형술을 시행할 수 있음을 확인하였다.

Acknowledgments

This study was supported by a 2023 research grant from Pusan National University Yangsan Hospital.

Author Contribution

Conceptualization: Eui-Suk Sung. Data curation: Dong-Jo Kim. Writing—original draft: Dong-Jo Kim. Writing—review & editing: all authors.

ORCID

Dong-Jo Kim	https://orcid.org/0000-0001-7367-256X
Minhyung Lee	https://orcid.org/0000-0002-4038-1667
Jin-Choon Lee	https://orcid.org/0000-0002-5629-4277
Eui-Suk Sung	https://orcid.org/0000-0001-8752-3426

REFERENCES

- Holinger LD. Etiology of stridor in the neonate, infant and child. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1980;89(5 Pt 1):397-400.
- Thorne MC, Garetz SL. Laryngomalacia: Review and summary of current clinical practice in 2015. *Paediatr Respir Rev* 2016;17:3-8.
- Day KE, Discolo CM, Meier JD, Wolf BJ, Halstead LA, White DR. Risk factors for supraglottoplasty failure. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2012;146(2):298-301.
- Lane RW, Weider DJ, Steinem C, Marin-Padilla M. Laryngomalacia. A review and case report of surgical treatment with resolution of pectus excavatum. *Arch Otolaryngol* 1984;110(8):546-51.
- Belmont JR, Grundfast K. Congenital laryngeal stridor (laryngomalacia): Etiologic factors and associated disorders. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1984;93(5 Pt 1):430-7.
- Lee KS, Chen BN, Yang CC, Chen YC. CO2 laser supraglottoplasty for severe laryngomalacia: A study of symptomatic improvement. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2007;71(6):889-95.
- Richter GT, Thompson DM. The surgical management of laryngomalacia. *Otolaryngol Clin North Am* 2008;41(5):837-64, vii.
- Seid AB, Park SM, Kearns MJ, Gugenheim S. Laser division of the aryepiglottic folds for severe laryngomalacia. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1985;10(2):153-8.
- Senders CW, Navarrete EG. Laser supraglottoplasty for laryngomalacia: Are specific anatomical defects more influential than associated anomalies on outcome? *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2001;57(3):235-44.
- Whymark AD, Clement WA, Kubba H, Geddes NK. Laser epiglottopexy for laryngomalacia: 10 years' experience in the west of Scotland. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;132(9):978-82.
- Pae SY, Park HJ, Chung SM, Kim HS. A case of aryepiglottoplasty with apnea technique in laryngomalacia patient. *Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2008;51(10):942-5.
- Preciado D, Zalzal G. A systematic review of supraglottoplasty outcomes. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2012;138(8):718-21.
- Durvasula VS, Lawson BR, Bower CM, Richter GT. Supraglottoplasty outcomes in neurologically affected and syndromic children. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2014;140(8):704-11.
- Faria J, Behar P. Medical and surgical management of congenital

- laryngomalacia: A case-control study. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2014;151(5):845-51.
- 15) Essouri S, Nicot F, Clément A, Garabedian EN, Roger G, Lofaso F, et al. Noninvasive positive pressure ventilation in infants with upper airway obstruction: Comparison of continuous and bilevel positive pressure. *Intensive Care Med* 2005;31(4):574-80.