

슬관절 내·외에 동시 발생한 국소형 색소성 용모 결절성 활액막염 - 1례 보고 -

조 율 · 손정환

고신대학교 복음병원 정형외과학교실

Localized Pigmented Villonodular Synovitis of the Knee with Concomitant Intra- and Extra-Articular Lesion - A Case Report -

Yool-Cho · Jung-Hwan Son

Department of Orthopaedic Surgery, Kosin University College of Medicine, Busan, Korea

Abstract

Pigmented villonodular synovitis (PVNS) is benign proliferative disorder of the synovium and occurs most commonly in the knee joint. We report a case of patient who diagnosed as localized pigmented villonodular synovitis of the knee with intra- and extra-articular involvement simultaneously. We resected the lesions by arthroscopic excision and open excision, respectively.

Key words : Localized pigmented villonodular synovitis, Arthroscopic excision, Open excision.

서 론

색소성 용모 결절성 활액막염(pigmented villonodular synovitis)은 명확한 원인이 밝혀지지 않은, 관절 활액막과 건초 점액낭을 주로 침범하여 결절성 구조를 이루는 증식성 질환으로 드문 질환이다. 대부분 한쪽 부위의 하나의 대관절에서 잘 발생하며 특히 80%가 슬관절에서 일어난다.^{1, 2)}

초기에는 단순 방사선학적 변화가 없으므로 종종 진단과 치료가 지연되는 경우가 있다.³⁾ 또한, 슬관절 내에서도 반월상 연골-관절낭 부위가 가장 흔하며 그 외 과간 절흔 부위, 경골 융기 부위, 슬개골 주변 등에 발생하며 드물게는 후방 구획이나 슬개 지방체에서 발생된 예도 보고되고 있다.⁴⁻⁶⁾ 하지만, 슬관절 내·외에서 동시에 발생하는 경우는 아주 드물다.⁷⁾

이에 저자들은 슬관절 내·외에서 동시 발생한 국소형 색소성 용모 결절성 활액막염을 관절경하 절제술과 관절적 절제술로 동시에 치료한 사례를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

52세 여자 환자가 3년간의 우측 슬관절의 부종, 동통을 주소로 내원하였다. 외상력은 없었으며, 슬관절 부종과 동통 증상으로 타병원에서 골관절염 진단 후에 약물 치료를 시행하였으나 증상의 호전이 없어 본원으로 전원되었다. 우측 슬관절의 이학적 검사상 약 10도의 굴곡 감소 소견 및 중등도의 관절 부종을 보였고 McMurray 검사상 내회전 및 외회전에서 양성 소견이, patella grind test상 양성 소견이 관찰되었다. 또한, 슬관절 후방의 압통소견이 관찰되었고, 슬관절 최대 굴곡시 원위 대퇴골의 후내 측부에 종물이 촉진되었는데, 15 x 10 cm 크기로 주변 조

교신저자 : 손 정 환
주소 : 602-702 부산광역시 서구 압남동 34번지
고신대학교 복음병원 정형외과학교실
TEL : 051-990-6467, FAX : 051-243-0181
E-mail : junghson@dreamwiz.com

직에 고정되어 있지 않는 연성의 종물이었다.

단순 방사선 사진상 전반적으로 골관절염 소견과 건측에 비하여 원위 대퇴골 내측 부위의 골성 경화가 더 관찰되었고 연부 조직의 종창 소견이 관찰되었으나, 슬개대퇴 관절 및 대퇴경골 관절 간격의 현저한 증가는 관찰되지 않았다.(Fig. 1) 자기 공명 영상에서 우측 슬관절 후방에 6.5 x 6.5 x 4.6cm 크기의 대퇴골 과상부로부터 전방십자인대 부착부로 연결되는 미만형의 불규칙한 다발성 종물이 관찰되었으며 이 종물은 대퇴골 외측과의 후방으로 1.1 x 1.0 cm 가량 침윤한 소견이 관찰되었다. 그 외에 대퇴슬개 관절 상방에 3 x 2.4 x 2.4cm 크기의 종물 및 슬와근 하에 동일한 진행방향의 6.1 x 2.6 x 3.5cm 크기의 종물이 관찰되었다. 슬와근 하의 종물도 후방 십자인대 부착부의 바로 외측부를 후방에서 0.8 x 0.9 cm 가량 침윤하고 있었다. 이 종물들은 T1 강조 영상에서는 중등도의 신호 강도였으며 T2 강조 영상에서는 고신호와 저신호가 혼재된 이질성으로 경계가 분명한 타원형으로 비슷한 신호 강도를 보이는 종물들이 슬개하 지방체의 여러 군데에서도 관찰되었고 조영제 증강시 증폭되어 색소 용모 결절성 활액막염, 활막 혈관종 또는 황색종 등이 의심되었다.(Fig. 2) 또한 대퇴골 내과와 경골 내과의 관절연골 부분적으로 소실되어 골내 낭종 및 부종 소견이 관찰되었다.(Fig. 3)

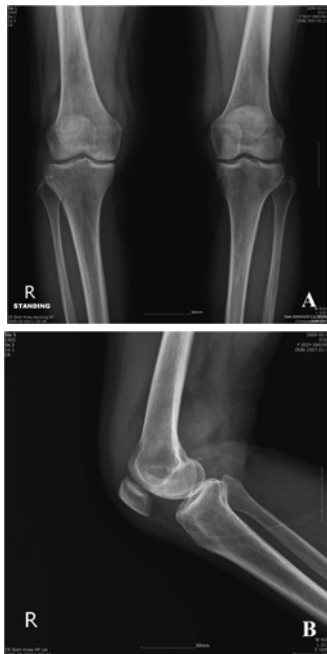


Fig. 1 A. On preoperative AP radiograph, there is no significant joint space widening of femorotibial joint. The radiograph shows bony sclerosis of medial compartment of right knee. B. On lateral radiograph, there is increased soft tissue shadowing on popliteal fossa.

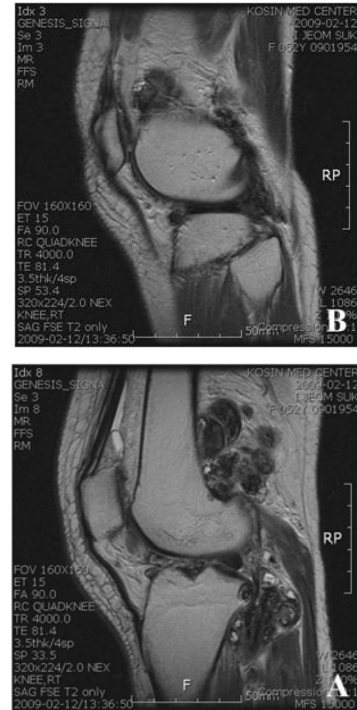


Fig. 2. A. T2-weighted sagittal magnetic resonance image of the right knee shows a inhomogenous signal mass posterior to the femur and tibia respectively. B. The lesion was located in superior to the patella.

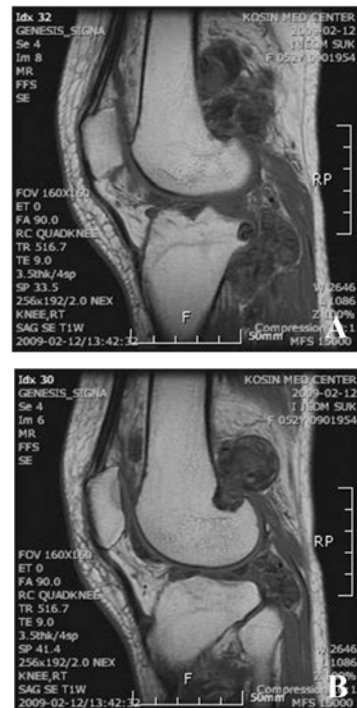


Fig. 3. A. T1-weighted sagittal magnetic resonance image of the right knee shows a bony erosion just lateral to the posterior cruciate ligament insertion. B. T1-weighted sagittal magnetic resonance image of the right knee shows a bony erosion posteriorly of lateral femoral condyle.

우측 슬관절에 기본적인 3개의 portal을 이용한, 관절경 상 관절내 미만성으로 핑크색의 활액막이 증식된 소견이 관찰되었고 대퇴슬개 관절의 종물은 증식된 활액막을 따라서 슬개낭으로부터 연결되어 있었고 슬개하 지방체의 종물은 증식된 활액막과 별개로 구분되지는 않았다.(Fig. 4) 관절경하로 흡입 절단기와 절단 겸자를 이용하여 활액막 절제술을 시행하였고 슬개낭 부위는 portal의 위치를 바꿔가며 절제술을 시행하였으며, 출혈 부위는 전기소작기를 이용하여 조절하였다. 대퇴골과 경골 내과 부위에는 Outerbridge grade III의 골관절염 소견이 관찰되어 다발성 천공술을 시행하였고 내측 반월상 연골은 퇴행성 변화로 인한 중심부 복합 파열이 관찰되어 반월상 연골 부분 절제술을 시행하였다. 관절경하로 후방의 종물은 관찰되지 않아서 복와위로 바꾼 후 후방 접근법의 피부 절개를 통하여 종물을 노출시켰으며, 대퇴골 후방부위의 종물은 반양막근과 대퇴 이두근 사이에 위치하여 후방으로 신경혈관 다발을 밀어올리는 양상이었으나, 대퇴골과 관절낭을 침범하지 않았다. 경골 후방부위의 종물은 외측 비복근보다 깊게 위치하였고 슬와근의 주행과 비슷한 양상으로 있었으나, 대퇴골에서와 같이 경골을 침윤하지는 않았다. 종물은 주변 근육을 포함한 연부조직과 쉽게 분리하여 제거할 수 있었다.(Fig. 5)

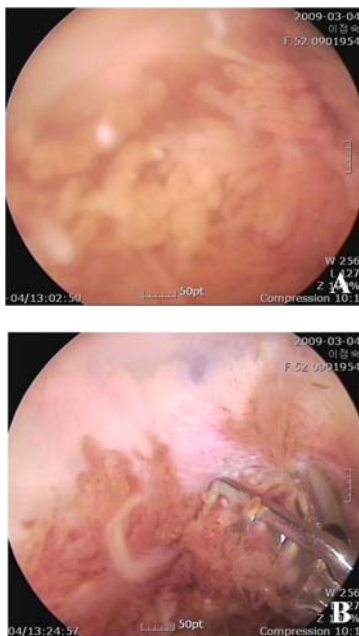


Fig. 4. A. Arthroscopic finding; There are hypertrophic synovium in the suprapatellar pouch. B. The arthroscopic excision was performed for intraarticular lesion.



Fig. 5. Gross picture of resected mass located in popliteal area of the knee. Multilobulated mass of brown colored soft tissue which are capsulated papillary shape.

관절 내 외에서 절제한 종물의 병리 조직 소견은 서로 일치하였으며 색소성 용모 결절성 활액막염으로 진단되었고 수술 후 2주간 장하지 석고 부목 고정 후 관절 운동 및 체중 부하 운동을 시행하였다.(Fig. 6) 8개월 추시에서 증상은 완전 소실되었고 관절 운동의 제한도 관찰되지 않았으며 더 이상의 종물은 촉진 되지 않았고 정상적인 일상생활을 하고 있다.(Fig. 7)

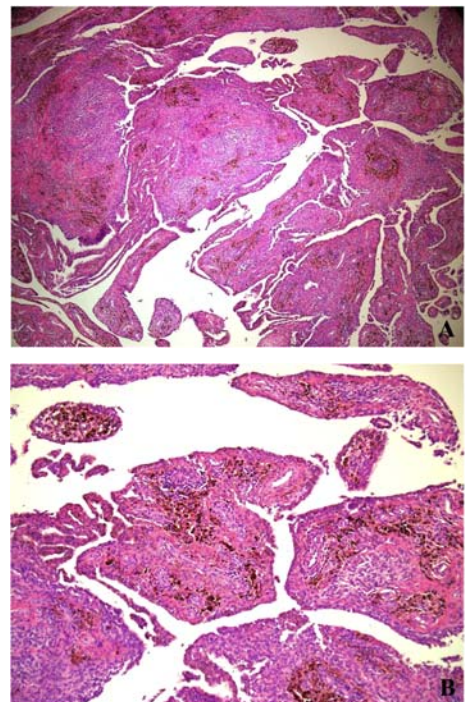


Fig. 6. A. Microscopic finding shows a villous formation with mononuclear stromal cells and populations of hemosiderin-laden macrophages (H&E, x40). B. The villi are lined by an attenuated layer of synovial cells. And hemosiderin laden histiocyte, scattered lymphocytes are present. (H&E, x100).



Fig. 7. A. Postoperative clinical photograph shows arthroscopic portals. B. Postoperative clinical photograph shows posterior incision of popliteal area.

고 찰

초기에는 단순 방사선학적 변화가 없으므로 종종 진단과 치료가 지연되는 경우도 있다.³⁾ 슬관절의 전방 통증만을 호소하는 예에서 자기공명영상 검사를 하지 않는 경우 진단과 적절한 치료가 미루어지는 경우도 있다.⁸⁾ 대부분의 색소성 용모 결절성 활액막염의 단순 방사선학적 소견은 압력 현상으로 증식된 활액막이 골을 향하여 지속적인 혈관을 형성하여 발생한다고 알려져 있다.²⁾ 또한, 슬관절은 관절낭 자체가 관절내의 용량 변화에 따라서 쉽게 커지는 특징을 가지기 때문에 압력에 의한 골연골의 변화가 고관절, 견관절과 같은 관절에 비해서 드물게 일어난다.^{1, 2)} 본 증례에서도 타병원에서 단순방사선 사진만으로 골관절염으로 오인하여 진단이 미루어졌으며 종물이 크게 만져지고 나서야 전원되어 진단되었다. 색소성 용모 결절성 활액막염은 자기공명영상이 진단에 결정적인데, T1 강조 영상에서 헤모시데린은 저신호 강도 또는 근육과 비슷한 신호 강도를 보이고 T2 강조영상에서는 더욱 저신호 강도를 보이고, 지방은 고신호 강도를 보이므로 만일 지방과 헤모시데린에 의하여 저신호 강도에 고신호 강도가 불균질 양상으로 보이면 색소 용모 결절성 활액막염을 강력히 의심할 수 있다. 본례에서도 비슷한 신호 강도를 보여 색소 용모 결절성 활액막염

이 가장 의심되었다. 대퇴골과 경골에서 골 침윤이 의심되는 병변은 정확한 시기는 알 수 없으나, 오랜 기간 전에 발생한 것으로 추정되며, 이러한 병변이 말기에 나타나므로 비특이적인 경우가 많으나, 골성 병변이 존재하는 것이 좀더 나쁜 예후의 한 인자라고 보고된 바도 있다.⁹⁾ 그런데, 자기공명영상과는 달리 실제 수술소견에서 골 침윤은 관찰되지 않아 이 자체가 경과에 큰 영향을 주지는 못할 것으로 생각된다.

색소성 용모 결절성 활액막염이 슬관절에 발생할 때에는 미만형과 국소형의 두 가지 형태로 나타나며, 전자는 관절 활액막의 전반에 걸쳐 여러 부위를 침범하는 반면, 후자는 결절이나 자루형 종물 형태로 활액막의 일부에 국한되어 나타난다.¹⁰⁾ 본 증례와 같은 국소형은 슬관절 내에서 반월상 연골-관절낭 부위가 가장 흔하며 그 외 과간 절흔 부위, 경골 융기 부위, 슬개골 주변 등에 발생한다고 보고되며 드물게는 후방 구획이나 슬개 지방체에서 발생된 예도 보고되고 있다.⁴⁻⁶⁾ 우리나라에서도 슬관절에서 발생한 색소성 용모 결절성 활액막염이 보고되고 있는데, 슬관절 관절 내·외에서 동시에 발생한 경우도 박 등에 의해서 보고되었다.^{4, 7)}

색소성 용모 결절성 활액막염의 일반적인 치료는 수술적 치료이다. 미만형은 광범위한 활액막 절제술이 필요하며 그로 인한 수술 후 관절 운동의 장애를 예방하기 위해 적극적인 재활 요법이 병행되어야 한다.^{1, 3)} 미만형은 재발율이 국소형보다 높아서 관절 내 방사선동위원소나 외부 방사선 빔과 같은 부가적인 시술이 필요할 수도 있다.³⁾ 이에 반하여 국소형은 단순 제거술 만으로도 치료는 충분하다고 할 수 있다.^{3, 4, 7)} 그리고 병변이 관절 내에 위치한 경우 관절경 수술이 필수적인데, 그 이유는 병변에 의한 잠김 등의 기계적 증상을 나타낼 때는 반월상 연골 손상 증세를 동반한 병적 추벽 증후군과 같은 슬내장과의 감별을 위해서이며, 다수의 저자를 통하여 관절경하 절제술 만으로도 충분한 절제가 가능하다고 알려져 있기 때문이다.^{3, 4, 6, 7)} 그러므로 본 증례와 같은 경우에 대퇴 슬개 관절내에 위치한 종물은 관절경적 절제술을 시행하고 관절 외에 위치한 후방의 종물은 관절외적 절제술을 시행하는 것이 권장할만 하다고 할 수 있다. 슬관절 내 외에서 동시에 병발한 국소형 색소성 용모 결절성 활액막염 1례에 대하여 관절경 및 관절외적 절제술을 통하여 증상의 소실을 이루어 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Dorwart RH, Genant HK, Johnston WH, Morris JM: Pigmented villonodular synovitis of synovial joints: clinical, pathologic, and radiologic features. *Am J Roentgenol* 143(4):877-885,1984
- 2) Goldman AB, DiCarlo EF: Pigmented villonodular synovitis. Diagnosis and differential diagnosis. *Radiol Clin North Am* 26(6):1327-1347,1988
- 3) Kramer DE, Frassica FJ, Frassica DA, Cosgarea AJ: Pigmented villonodular synovitis of the knee: diagnosis and treatment. *J Knee Surg* 22(3):243-254,2009
- 4) Lee B, Yoo J, Lee S, Min K: Localized pigmented villonodular synovitis of the knee. Arthroscopic treatment. *Arthroscopy* 14(7):764-768,1998
- 5) Muscolo DL, Makino A, Costa-Paz M, Ayerza MA: Localized pigmented villonodular synovitis of the posterior compartment of the knee: diagnosis with magnetic resonance imaging. *Arthroscopy* 11(4):482-485,1995
- 6) Palumbo RC, Matthews LS, Reuben JM: Localized pigmented villonodular synovitis of the patellar fat pad: a report of two cases. *Arthroscopy* 10(4):400-403,1994
- 7) Park TS, Choi YH: Localized pigmented villonodular synovitis of the knee with concomitant intra- and extra- articular lesion. *J Korean Knee Society* 13(2):249-252,2001
- 8) Edwards MR, Tibrewal S: Patellofemoral joint pain due to unusual location of localized pigmented villonodular synovitis - a case report. *Knee* 11(4):327-329,2004
- 9) Granowitz SP, D'Antonio J, Mankin HL: The pathogenesis and long-term end results of pigmented villonodular synovitis. *Clin Orthop Relat Res* 114:335-351,1976
- 10) Schwartz HS, Unni KK, and Pritchard DJ: Pigmented villonodular synovitis. A retrospective review of affected large joints. *Clin Orthop Relat Res* 247:243-255,1989