

슬관절의 국소적 색소 용모 결절성 활액막염에 대한 관절경적 치료

연세대학교 의과대학 정형외과학교실, 을지대학교 의과대학 정형외과학교실*

김성재 · 신상진 · 최남홍* · 주의탁 · 김형찬

Arthroscopic Treatment for Localized Pigmented Villonodular Synovitis of the Knee

Sung-Jae Kim, M.D., Sang-Jin Shin, M.D., Nam-Hong Choi, M.D.*,
Eui-Tak Joo, M.D., and Hyung-Chan Kim, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Yonsei University College of Medicine
Department of Orthopaedic Surgery, Eulji University College of Medicine*

ABSTRACT : Diagnosis of localized pigmented villonodular synovitis (PVNS) is difficult because of its rarity and indistinctive symptoms. This study presented 11 cases of localized PVNS of the knees, which were diagnosed and treated by arthroscopic technique. There were 6 males and 5 females between the age of 15 and 59 years (mean 34.6 years). The interval from the onset of symptoms to treatment ranged from 2 months to 3 years (average 29.9 months). All patients complained knee pain and 7 patients complained palpable mass. Four of the 11 patients had trauma history. The most common involved site was anteromedial synovium near the anterior horn of medial meniscus (5 patients). The remaining cases were identified on anterior fat pad (2 cases), suprapatellar pouch, posteromedial compartment, medial gutter and the anterior horn of the lateral meniscus, respectively. Nine cases had 1 mass and the remaining cases each had 2 or 3 masses. There was no evidence of recurrence during the follow-up period (average 29.9 months). Arthroscopy is effective in the diagnosis of localized PVNS with minimal morbidity and in the definitive treatment for PVNS.

KEY WORDS : Knee, Pigmented villonodular synovitis, Arthroscopy

서 론

색소 용모 결절성 활액막염은 1,000,000명 당 1.8례의 발생율을 보이며 슬관절에 가장 많이 침범하는 활액막 증식 질환으로 알려져 있다¹⁾. 이러한 희소성으로 인해 많은 증례의 보고를 통한 정확도에 대한 특성 및 장기간의 추시 관찰 결과는 거의 없다.

Granowitz 등²⁾은 색소 용모 결절성 활액막염을 미만성 색소 용모 결절성 활액막염 (Diffuse form)과 국소적 색소 용모 결절성 활액막염 (Localized form)의 두 가지 형태로 분류하였다. 두 가지 형태 중 슬관절에는 미만성 색소 용모 결절성 활액막이 더욱 높은 빈도로 발견되고 있다. 그러므로 국소적 색소 용모 결절성 활액막염에 대한 임상적 특징 및 치료 결과는 소수의 증례 보고를 통하여 파악할 수 밖에 없다^{3,10,11)}. 또한 국소적 색소 용모 결절성 활액막염은 임상 증상이 비특이적이며 일반 방사선 사진상 정상 소견을 나타내므로 술전 진단이 어려운 것으로 알려져 있다. 비록 자기 공명 영상 촬영 사진으로 진단이 가능하지만 다른 연부 조직 종양과의 완전한 감별이 가능한 것은 아니다. 최근 관절경의 보급으로 관절경을 통한 색소 용모

* Address reprint requests to
Sang-Jin Shin, M.D.
Department of Orthopaedic Surgery, Yonsei University
College of Medicine, Seoul, Korea
#134 Sijchon-dong, Seodaemun-ku, Seoul, Korea
Tel : 82-2-361-5640. Fax : 82-2-363-1139

결절성 활액막염의 진단과 치료로 좋은 성적을 보고하고 있지만 증례 보고 수준에 머물고 있다. 이에 저자들은 관절경적 진단 및 치료를 시행받았던 11명의 국소적 색소 용모 결절성 활액막염 환자들을 대상으로 임상 양상 및 치료 결과를 분석하였다.

연구 대상 및 방법

1991년부터 1997년까지 슬관절 관절경 수술을 받았던 환자 2,600명 중 국소적 색소 용모 결절성 활액막염으로 진단 및 치료하였으며 최소 2년 이상 추시 관찰이 가능하였던 환자 11명을 대상으로 하였다. 대상 환자의 병변은 모두 슬관절에 국한되어 있었으며 조직 병리 검사상 특징적인 색소 용모 결절성 활액막염의 소견을 보여 병명을 확진받았다. 환자들의 의무기록으로부터 환자의 연령, 성별, 수술기록, 증상 이환 기간 및 외상력을 조사하였다. 그 밖에 이환된 슬관절의 부종, 잠김 증상(locking), 운동 제한 등의 증상과 이학적 검사 소견을 조사하였고 종물의 형태학적 특징과 병변의 위치 및 크기 등은 관절경 소견으로 조사하였다. 수술 전 모든 환자에서 일반 방사선 사진을 촬영하였으며 자기 공명 영상 촬영은 11명 중 4명에서만 시행하였다. 1명의 환자에서 전산화 단층 촬영 및 초음파 검사를 시행하였다. 치료는 모두 제1 저자에 의하여 시술되었으며 관절경적 절제술 및 부분 활액막 제거술을 시행하였다. 또한 동반 손상 및 병변은 절제술과 동시에 치료하였다. 이들의 병리학적

진단은 모두 한 명의 조직 병리 의사가 시행하였다. 수술 후 평균 추시 관찰 기간은 29,9개월이었다(24-36개월). 모든 환자가 추시 가능하였다. 추시 관찰은 외래에서 수술 후 2주, 3개월, 6개월에 시행하였으며 그 후로는 매년마다 정기적인 검사를 하였다. 추시 관찰시 관절경적 절제술을 시행한 슬관절에 대해서 환자의 자각 증세 및 이학적 검사를 시행하였으며 재발 여부 등을 관찰하였다.

결 과

환자들의 평균 연령은 34.6세(15-59세)였다. 11명 중 7명(64%)의 환자들이 30대였다. 남자가 6명이었으며 여자가 5명이었다. 6명의 환자가 우측 슬관절에 병변이 있었다. 증상 이환 기간은 2개월에서 3년 사이로 6개월 미만이 4례, 6개월에서 1년 사이가 4례로 1년 이하가 많았다. 11명중 4명(36%)은 외상의 과거력이 있었다(Table 1). 자각 증상은 모든 환자에서 동통을 호소하였으며 종물 촉진 7례, 잠김 증상 7례, 부종 6례 그리고 신전 장애가 5례로 평균 20-30°의 신전 장애가 관찰되었다(Table 2). 그 밖에 불안정감(giving way) 증상도 4례에서 관찰되었다. 관절면 통증과 McMurray 검사 양상이 3례 있었으며 슬개골 압박 검사 양성이 1례, 3도의 슬관절 전방 불안정성이 1례에서 관찰되었다. 수술전 시행한 방사선 검사에서는 9례에서 정상 소견을 보였으며 2례에서는 내측 대퇴 과상면에 관절염 소견을 나타내었다.

Table 1. Summary of Patients

Case	Sex/Age (yrs)	Size (cm)	Site	Duration (mos)	Associated Diagnosis	Trauma Hx	Location	Mass Characters	F/U (mos)
1	F/59	2×1×0.5	Lt	36	Degenerative Arthritis	No	Suprapatella pouch	Sessile	25
2	M/31	1.5×1×1	Lt	36	Popliteal Cyst	No	Posteromedial	Pedicle	26
3	F/33	1.5×1.5×1	Lt	36	Traumatic Arthritis	Yes	Anterolateral	Pedicle	48
4	F/15	3×2.5×1.5	Rt	5	None	No	Infrapatellar fat pad	Pedicle	30
5	M/18	1×1×0.5	Rt	7	None	No	Anteromedial	Pedicle	24
6	F/35	3×2×1.2	Rt	2	Medial meniscus tear	Yes	Anteromedial	Pedicle	28
7	M/51	1×0.5×0.5 1×1×0.5 2.5×2×1	Rt	2	Medial Patella plica	Yes	Anteromedial	Sessile	32
8	M/34	2×1.7×0.6	Lt	2	None	No	Medial gutter	Sessile	30
9	F/35	1×1×0.5	Rt	8	None	No	Anteromedial	Pedicle	24
10	M/37	2×2×1 1×1×0.3	Rt	10	ACL tear	Yes	Infrapatellar fat pad	Pedicle	28
11	M/33	2.5×1.5×1	Lt	12	None	No	Anteromedial	Pedicle	34

Table 2. Preoperative symptoms

Symptoms	Patients (%)
Pain	11 (100)
Palpable mass	7 (64)
Locking	7 (64)
Swelling	6 (55)
Limitation of motion	5 (45)
Giving way	4 (36)



Fig 1. On MR imaging(T2-WT) a low signal intensity soft tissue mass was demonstrated in the anterior compartment of knee, and articular diffusion was noted on the suprapatella pouch.

동반 질환으로 내측 반월상 연골 파열, 베이커씨 낭종, 병적 내측 슬개골 추벽, 전십자 인대 손상이 각각 1례씩 있었고 퇴행성 관절염이 2례 있었다. 이들 동반 병변에 대해서는 색소 용모 결절성 활액막염 제거술과 함께 치료를 시행하였다. 11례 중 4례는(증례 1, 2, 6, 10) 동반된 질환에 대한 치료를 시행하다가 우연히 발견되었다. 종물이 촉지되었으며 다른 병변 검사에 음성을 보여 자기 공명 영상 촬영을 시행하였던 4례는(증례 4, 5, 8, 9) 슬전 색소 용모 결절성 활액막염으로 진단을 내렸다. 자기 공명 영상 사진상 T1과 T2 에서 내부에 저신호 강도를 보이는 경계가 명확한 연부 조직 종물 소견을 나타내었다(Fig 1). 나머지 3례는 종물이 촉지되었으나 자기 공명 영상 검사는 시행하지 않고 슬전 색소 용모 결절성 활액막염을 의심하여 진단적 관절경 시술로 진단을 얻은 경우였다.

관절경 소견상 11례 중 9례에서 갈색을 띠는 1개의



Fig 2. Arthroscopic view of localized PVNS attached on the anteromedial wall through superolateral portal.

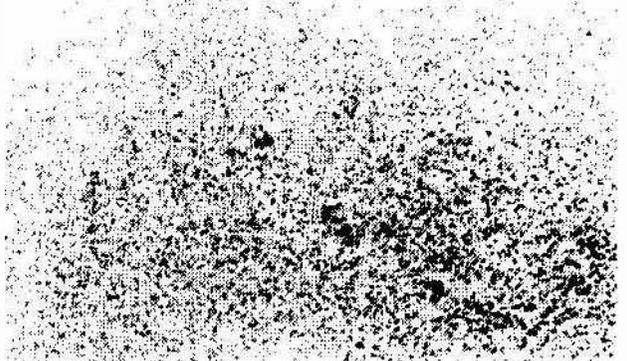


Fig 3. Edges of villi were lined by plump layers of synovial cells. Stroma comprised exuberant histiocytes and lymphocytes (H & E, x250).

종물이 발견되었으나 나머지 2례 중 1례에서는 2개의 종물이, 다른 1례에서는 3개의 종물이 관찰되었다. 종물은 11례 중 5례(45%)가 전내방 구획 특히 내측 반월판 전각 부위의 활액막에 위치하여 가장 많은 빈도를 차지하였다(Fig 2). 2례는 슬개하 지방에서 발견되었으며, 나머지는 각각 슬개상부, 후내측 구획, 외측 반월 연골의 전방 및 내측 구에서 1례씩 관찰되었다. 적출된 종물의 크기는 평균 $1.6 \times 1.4 \times 0.9$ cm 이었으며 가장 큰 종물은 $3 \times 2.5 \times 1.5$ cm 으로 전방 구획에서 관찰되었다.

색소 용모 결절성 활액막염의 조직학적 소견은 활액막의 육아성 염증으로 용모 결절상 모양과 활액막 세포의 평행 배열과 기질 내에서는 콜라겐 생성 망추성 세포, 지방함유 단백 거식 세포 및 다핵 거대세포들이 관찰되

며 이들 조직구 내 헤모시데린 침착이 보였다(Fig 3).
추시 관찰 상 동통의 재발 및 종물의 촉진 등 국소적 색소 용모 결절성 활액막염의 재발을 의심하는 소견은 관찰되지 않았다. 8례에서는 완전한 증상 소실을 보였으나 3례에서는 보행시 또는 힘든 일을 하고 난 후 경미한 슬관절 동통을 호소하였다. 베이커 낭종이 있었던 1례에서는 술 후 7개월에 경직 슬관절이 발생하여 관절경적 관절 유리술을 시행하였다.

고 찰

Jaffe 등⁹⁾은 1941년 용모 결절성 모양을 가지며 다핵성 거대 세포 및 지방 함유 대식 세포에 헤모시데린 침착을 보이는 조직구가 많이 침착된 새로운 형태의 조직학적 활액막 병변을 색소 용모 결절성 활액막염이라고 명명하였다. 색소 용모 결절성 활액막염은 1,000,000명 당 1.8례의 발생율을 보이는데 그 중의 75%는 미만성 색소 용모 결절성 활액막염으로 보고되고 있다. 국소적 색소 용모 결절성 활액막염은 결절 또는 유정의 종물로서 활액막을 국소적 침범하여 발생하는 것으로 회소성으로 인해 질환의 병인, 임상 양상, 치료 결과 등에 대한 연구를 위한 충분한 증례 분석이 어려운 것으로 알려져 있다.

본 질환의 발생 원인은 아직 의견이 분분하나 현재 까지 지방 대사의 부분 결손, 양성 신생물 기원설과 조직 염증 등이 제시되고 있다.^{11,12)} 건막의 거대 세포종과 조직학적 소견이 일치하며 드물게 주변 골조직으로의 침범, 그리고 미만성 색소 용모 결절성 활액막염의 경우 높은 재발율을 보여 신생물 기원설을 뒷받침하고 있다. 그러나, 조직내 염증 소견과 임상적으로 양성인 성격을 보이는 점으로 인하여 조직 염증설을 주장하는 보고도 있다. 또한 외상력과 색소 용모 결절성 활액막염 발생과의 연관성도 제기되고 있다. 본 조사에서도 11례 중 4례에서 증상 유발 전 외상력을 가지고 있었다. 그러나 실험적으로 반복된 외상 후 색소 용모 결절성 활액막염의 발생을 증명하지 못하였으며 보고자마다 외상력과의 연관 빈도를 다양하게 보고하고 있어 외상력과 색소 용모 결절성 활액막염의 발생의 연관성을 찾기에는 부족한 것으로 사료된다.^{11,2)}

국소적 색소 용모 결절성 활액막염의 임상 양상은 동통 및 압통, 슬관절의 잠김 증상 및 불안정, 슬관절 운동 제한, 슬관절 부종 등의 슬내장증의 일반적인 소견을 보이고 있다. 본 조사에서도 모든 환자가 슬관절 동통을 호소하였으며 그 다음으로 종물 촉진, 잠김 증상, 슬관절 부종 순이었다. 연골판 파열이나 관절내 유리체 등으로 인한 신전 제한 또는 슬관절 불안감도

나타났었다. 일반 방사선 검사 또한 모든 예에서 정상 소견을 보였다. 색소 용모 결절성 활액막염의 방사선 소견으로 연부 조직 종창, 활액막 비후로 인한 골 미란, 골 낭종 등을 보고하는 저자들도 있으나 이들은 주로 미만성이 진행한 일부 경우에 국한된 경우로 알려져 있다⁹⁾.

이학적 검사나 일반 방사선 촬영이 진단에 크게 도움을 주지 못하므로 수술전 진단률은 매우 낮다. 본 연구에서도 11례 중 4례에서만 수술전 시행한 자기 공명 영상 촬영의 도움으로 색소 용모 결절성 활액막염을 진단하였다. 4례는 자기 공명 영상 촬영을 시행하지 않았으며 종물 촉진 등으로 색소 용모 결절성 활액막염 의심하에 진단적 관절경 수술로 발견을 하였다. 그러나 자기 공명 영상 촬영은 수술전 진단 및 병변의 위치를 알 수 있는 장점도 있으나, 비슷한 소견을 보이는 병변이 존재하므로 그 특이도는 에민도에 비해 낮은 것으로 보고되고 있으며 비용 또한 환자에게 부담으로 작용하는 단점도 있다.

색소 용모 결절성 활액막염의 조직학적 소견은 조직구와 다핵 거대세포들을 포함하는 섬유성 기질의 활발한 증식과 거식 세포 및 활액막 세포내의 헤모시데린 침착을 관찰할 수 있다. 그러므로 색소 용모 결절성 활액막염의 종물이 노란 갈색으로 보이는 것은 헤모시데린 침착과 지방 침착의 결과로 나타나게 된 것이다. 국소적 색소 용모 결절성 활액막염의 조직학적 소견은 미만성과 비슷하지만 혈관 분포가 적고, 섬유 기질이 약간 풍부하며, 활액막 세포내의 헤모시데린 침착이 더 작은 것이 특징이다⁹⁾.

본 조사에서 국소적 색소 용모 결절성 활액막염은 전방 구획에서 가장 많이 발견되었다. Beguin 등¹¹⁾은 조사한 병변 8례 모두 전방구획에 위치함을 보고한 바 있다. 국소적 색소 용모 결절성 활액막염의 발생 부위가 주로 슬관절의 전방부에 많이 발생하는 요인은 관절경적 진단 및 제거를 용이하게 하여 좋은 결과를 얻을 수 있었다고 사료된다.^{13,9,10)} Musculo 등¹⁰⁾은 슬관절 후방에 발생하였던 색소 용모 결절성 활액막염을 보고하며 관절경에 의한 진단이 주로 전방 관찰에 국한되는 경우 발견을 못할 수도 있으며 자기 공명 영상 촬영이 도움이 된다고 하였다. 그러나 본 연구에서 후방에 발생한 1례의 경우 자기 공명 영상 도움 없이 진단적 관절경 수술로 발견하였다.

국소적 색소 용모 결절성 활액막염은 결절 또는 종물에 의한 활액막의 국소적 침범이 특징이며 미만성 형태는 관절의 전체 활액막을 침범한다. 따라서 국소적 색소 용모 결절성 활액막염의 가장 적절한 치료는 병변의 완전 절제로 과거에는 슬관절의 개방적 절제술을 시행하였다. 그러나 관절경 수술이 발달하면서 많

은 저자들이 관절경 수술에 의한 진단 및 치료를 보고하고 있으며 그 결과는 매우 좋은 것으로 알려져 있다. Beguin 등¹⁾ 은 관절경 수술의 장점을 다음과 같이 3가지로 요약 하였다. 첫째, 진단적 측면에서 관절경은 기존의 개방적 절제술에 비해 비침습적으로 정확한 진단을 가능하게 하며 둘째, 치료 측면에서 병변의 완전한 제거를 가능하게 하며 활액막 제거를 제한된 부분만 시행할 수 있는 장점이 있다고 하였다. 또한 미반성으로 관찰된 경우에도 관절경술로 전 활액막 제거술이 가능하다고 하였다. 셋째, 수술 후 추시 관찰 시 재발 여부 판정에 가장 훌륭한 도구로 사용될 수 있다고 하였다.

슬관절의 색소 용모 결절성 활액막염의 재발율은 미만성인 경우 높게 보고되어, Schwartz 등¹³⁾ 은 미만성 색소 용모 결절성 활액막염의 활막 절제술 후 25년간 23%의 재발율을 보고하였다. 그러나 국소적 색소 용모 결절성 활액막염의 경우 5% 미만의 재발율을 보고하고 있다¹⁴⁾. 본 연구에서 11례의 관절경적 제거술을 시행 받았던 국소적 색소 용모 결절성 활액막염 모두 추시 관찰 도중 재발 소견을 보이지 않았다.

결 론

국소적 색소 용모 결절성 활액막염은 낮은 발생 빈도와 비특이적인 임상 양상으로 인해 술전 진단이 어렵다. 임상적으로 국소적 색소 용모 결절성 활액막염이 의심이 되면 자기 공명 영상 촬영이나 진단적 관절경술로 진단할 수 있다. 관절경은 최소한의 이환율로 절제 생검을 통해 국소적 색소 용모 결절성 활액막염을 진단하는데 효과적일 뿐만 아니라 완전한 절제가 가능한 좋은 치료 방법 중 하나로 사료된다.

REFERENCES

1) Beguin J, Locker B, Vielpeau C and Souquieres G : Pigmented villonodular synovitis of the knee : Results from 13 cases. *Arthroscopy*, 5:61-64, 1989.
 2) Bronstein RD, Sebastianelli WJ and DeHaven KE : Localized villonodular synovitis presenting as a

loose body in the knee. *Arthroscopy*, 9:596-598, 1993.
 3) Fraire AE and Fechner RE: Intra-articular localized nodular synovitis of the knee. *Arch Path* 93: 473-476, 1972.
 4) Granowitz SP and Mankin HJ : Localized pigmented villonodular synovitis of the knee. *J Bone Joint Surg*, 49-A:122-128, 1967.
 5) Jaffe HL, Lichenstein L and Sutro CJ : Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis. *Arch Pathol*, 31:731-765, 1941.
 6) Klein, W and Jensen, KU : Arthroscopic synovectomy of the knee joint : indication, technique and follow up results. *Arthroscopy*, 4:63-71, 1988.
 7) Mirra J : Bone tumor, clinical, radiologic, and pathological correlations. Philadelphia, London, Lea & Febiger:1766-1775, 1989.
 8) Mckovich R and Parisien S : Localized pigmented villonodular synovitis of the knee : Arthroscopic treatment. *Clin Orthop*, 271:218-223, 1991.
 9) Musculo DL, Makino A, Costa-Paz M and Ayerza MA : Localized pigmented villonodular synovitis of the posterior compartment of the knee : Diagnosis with magnetic resonance imaging. *Arthroscopy*, 11:482-485, 1995.
 10) Ogilvie Harris DJ, McLean J and Zarnell ME : Pigmented villonodular synovitis of the knee: The results of arthroscopic synovectomy, partial synovectomy, and arthroscopic local excision. *J Bone Joint Surg*, 74-A:119-123, 1991.
 11) Palumbo RC, Matthews LS and Reuben JM : Localized pigmented villonodular synovitis of the patellar (fat pad): A report of two cases. *Arthroscopy*, 10:400-403, 1994.
 12) Rao AS and Vigorita JV : Pigmented villonodular synovitis (Giant cell tumor of the tendon sheath and synovial membrane), A review of eighty-one cases. *J Bone Joint Surg*, 66-A:76-94, 1984.
 13) Schwartz HS, Unni KK and Pritchard DJ: Pigmented villonodular synovitis. A retrospective review of affected large joints. *Clin Orthop*, 247:243-245, 1989.

소 주

색소 용모 결절성 활액막염은 드물게 발생하는 단관절성 병변으로 비특이적 증상 발현으로 인해 진단이 어려운 것으로 알려져 있다. 본 연구는 관절경적 시술로 진단 및 제거술을 시행 받았던 11명의 환자를 대상으로 임상 양상, 진단 및 치료 결과를 조사하였다. 모든 예에서 조직학 소견상 색소 용모 결절성 활액막염에 합당한 소견을 나타내었다. 6명은 남자였고 5명은 여자였으며, 연령층은 15세에서 59세(평균 34.6세) 였다. 증상발현 기간은 2개월에서 3년으로 관찰 되었고 (평균 29.9개월), 11례 모두에서 수술전 슬관절 동통을 호소하였다. 4례에서는 외상의 과거력이, 9례에서는 1개의 종물이 발견되었으나 나머지 2례에서 각각 2개 3개의 종물이 관찰되었다. 11례 중 5례가 내측 반월판 전각 부위의 활액막에서 발견되었으며, 2례는 슬개하 지방 그리고 나머지는 각각 슬개상부, 후내측 구획, 외측 반월 연골의 전방, 내측 구에서 1례씩 관찰되었다. 수술 후 평균 29.9개월의 추시 관찰상 11례 모두 재발의 소견은 관찰되지 않았다. 색소 용모 결절성 활액막염의 치료에 있어서 관절경 수술은 최소한의 이환율을 가지며 진단과 치료가 동시에 가능한 좋은 치료 방법 중 하나로 사료된다.

색인 단어 : 슬관절, 색소 용모 결절성 활액막염, 관절경