

혈우병성 슬관절염의 관절경적 활액막 제거술

경희대학교 의과대학 정형외과학교실

배대경·윤경호·김희선·김승환·정선택

Arthroscopic Synovectomy of the Knee in Hemophilic Patients

Dae Kyung Bae, M.D., Kyoung Ho Yoon, M.D., Hee Seon Kim, M.D.,
Seung Hwan Kim, M.D., and Sun Teak Chung, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, School of Medicine,
Kyung Hee University, Seoul, Korea

ABSTRACT: Purpose: To validate the arthroscopic synovectomy for the treatment of hemophilic knee.

Materials and Methods: From January 1996 to January 2001, 28 arthroscopic synovectomy were performed in 26 patients with hemophilic arthropathy of the knee. The mean age was 17.8 years. The mean follow-up period was 3 years 11 months. We used six portals (two anterior, two suprapatellar and two posterior) and posterior trans-septal portal in all cases.

Result: The mean frequency of hemarthrosis was 4 times per month preoperatively and 2 postoperatively. The mean amount of factor replacement was 4,633 units preoperatively and 1,505 postoperatively. The mean range of motion was 112° preoperatively and 107° postoperatively. On radiographic evaluation, three cases were progressed at the latest follow-up. On the subjective evaluation, significant or moderate improvement were in 19 cases (68%), and no improvement or deterioration in 9 cases (32%).

Conclusion: With complete synovectomy through the appropriate arthroscopic portals, arthroscopic synovectomy of the knee in hemophilic patients is the successful method in decreasing bleeding episodes, amount of factor replacement, knee pain and preventing or delaying onset of end-stage hemophilic arthropathy.

KEY WORDS: Knee, Hemophilia, Arthroscopic synovectomy

서 론

혈우병은 결핍된 항혈우병 인자의 종류에 따라 8번 인자가 결핍된 A형 혈우병, 9번 인자가 결핍된 B형 혈우병, von Willebrand 인자가 결핍된 von Willebrand's

disease로 나눌 수 있으며, 혈우병 A가 85%, 혈우병 B가 15%를 차지한다. 혈우병은 인체의 모든 부위에서 출혈을 유발할 수 있으며 정형외과적으로는 근육내 출혈, 관절강내 출혈로 인한 혈우병성 관절염, 관절강직, 구축, 변형 등을 유발할 수 있고 이 중 관절강내 출혈이 가장 흔하다. 반복된 관절강내 출혈로 인해 아급성 혈우병성 슬관절염과 수개월에서 수년간 지속하여 발생하는 만성 혈우병성 슬관절염은 만성 활액막염, 골단의 과성장, 연골 파괴, 관절 주위조직의 섬유화를 특징으로 한다. 초기에는 활액막의 비후로 인한 반복적인 출혈이 발생하며 이의 치료로 활액막 제거술은 출혈의 원인인 활액막을 제거함으로써 출혈의 빈도를 낮추고 통증을 감소시키는데 효과적인 방법으로 알려져 있다.

* Address reprint requests to
Dae Kyung Bae, M.D.
Department of Orthopaedic Surgery, School of Medicine,
Kyung Hee University
1 Hoegi-dong, Dongdaemun-gu, Seoul, Korea
Tel: 82-2-958-8366, Fax: 82-2-964-3865
E-mail: bdkyung@khmc.or.kr

그러나 기존의 관혈적 활액막 제거술은 관절 운동범위의 감소, 감염, 피부괴사 등 합병증의 발생률이 높을 뿐 아니라 모든 병적인 활액막을 제거하기 힘든 것으로 보고되고 있어 관절경적 활액막 제거술은 이러한 관혈적 활액막 제거술의 단점을 보완할 수 있는 방법으로 생각되어진다. 저자들은 혈우병성 슬관절염 환자에 대해서 관절경적 활액막 제거술을 시행한 후 임상적, 방사선학적 결과를 분석하고자 한다.

연구 대상 및 방법

1. 연구 대상

1996년 1월부터 2001년 1월까지 혈우병성 슬관절염으로 관절경적 활액막 제거술을 시행한 환자 중 1년 6개월 이상 추시 관찰이 가능하였던 26명, 28예를 대상으로 하였다. 추시 기간은 평균 3년 11개월 (1년 7개월- 6년 7개월)이었다. 26명 모두 남자였고, 수술 당시 환자의 연령은 8세에서 37세까지 평균 17.8세였으며, A형 (8번 인자 결핍) 혈우병성 관절염환자가 25명, B형 (9번 인자 결핍) 혈우병성 관절염환자가 1명이었다. 8번 인자 또는 9번 인자의 혈중 농도는 정상 5% 이상인 경우가 3예, 1-5%인 경우가 17예, 1% 이하인 경우가 8예였고, 출혈의 빈도는 한달에 평균 4.0회 (2~12회)였다. 항혈우병인자의 투여량은 수술 전 평균 1개월에 4,633 units (750-14,000units)였다. 술전 방사선학적 평가상 Arnold 및 Hilgartner 분류로 2기 4예, 3기 18예, 4기 6예였다. 이들 중 C형 바이러스성 감염에 감염되어 있는 환자는 16명, B형 바이러스성 감염에 감염되어 있는 환자는 2명이었고 AIDS에 감염되어 있는 환자는 없었다.

2. 혈액학적 처치

모든 환자의 술전 혈액학적 검사로는 CBC, PTT (Partial thromboplastin time), PT (prothrombin time), 응고인자의 혈중 농도와 inhibitor 측정술을 시행하였으며, inhibitor가 존재하지 않는 것을 확인하였다. 8번 항혈우병 인자의 투여는 수술 전날 체중 1kg당 50단위 (9번 인자는 체중 1kg당 65단위)를 투여 후 수술 당일 아침에 8번 인자 (혹은 9번 인자)의 혈중농도를 확인하여 수술 중 혈중 농도가 100%가 되도록 수술 직전에 부족한 양을 주입하였고 수술 직후에 사용할 투여량의 기준을 정하기 위하여 8번 인자 (혹은 9번 인자)의 혈중농도를 측정하였다. 수술 후 2일까지는 100%를 유지하도록 하고, 수술 후 1주일까지는 50%이상 그리고 2주까지 20%이상 유지하도록 하였다. 8번 인자의 반감기는 8시간, 9번 인자의 반감기는 12시간이므로 8번 인자는 1일 3회, 9번 인자는 1일 2회 투여하였다.

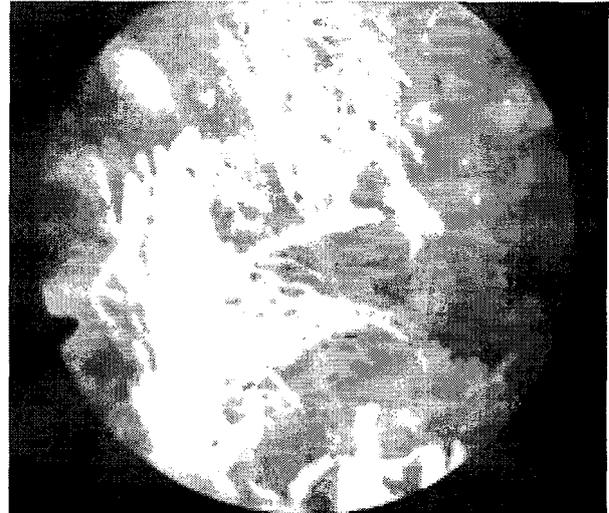


Fig. 1. Posterolateral compartment, preoperative.

3. 수술 방법

모든 환자에서 전신 마취 하에 지혈대를 사용하였으며, 수술은 전례에서 6부위의 portal (two anterior, two suprapatellar and two posterior)과 posterior trans-septal portal을 이용하여 전방 구획은 물론 후방 구획을 포함하여 가능한 모든 병적인 활액막을 제거하려고 하였다(Fig. 1). 또한 필요한 경우 반월상 연골판 절제술을 실시하고 유착된 조직을 제거하는 등 동반 병변을 같이 치료하였다. 술후 석고 부목은 하지 않고 Jones dressing을 실시하였으며 술후 제혈로 48시간 후에 hemovac을 제거하고 CPM 운동과 능동적 관절운동을 시작하였다. 입원기간은 7일에서 23일까지 평균 14일이었으며, 입원기간 중 사용한 항혈우병 인자의 투여량은 27,750 unit에서 105,500 unit까지 평균 53,648 unit였다.

4. 평가 방법

술전과 최종 추시시 출혈의 빈도, 투여한 항혈우병 인자의 양, 관절 운동범위를 조사하고, 임상적으로는 주관적 평가 방법 (significant improvement, moderate improvement, no improvement, deterioration)을 이용하였다. 방사선학적으로는 Arnold 및 Hilgartner 분류를 이용하여 술전과 최종 추시를 비교하였다.

결 과

1. 출혈의 빈도 및 투여한 항혈우병 인자의 양

출혈의 빈도는 술전 평균 1개월에 4.0회 (1~12회)에서

최종 추시시 2.0회 (0~6회)로 감소하였고, 항혈우병 인자와 투여량은 술전 평균 1개월에 4,633 units (750-14,000 units)에서 최종 추시시 1,505 units (0-12,000 units)로 감소하였다.

2. 운동 범위

술전 평균 굴곡 구축은 6도 (0~35도), 평균 후속 굴곡은 112도 (30~135도)였다. 술후 최종 추시시 굴곡 구축은 평균 5도 (0~25도)로 굴곡 구축이 없어진 경우가 7예, 굴곡 구축이 남은 경우가 21예였다. 후속 굴곡은 평균 107도 (20도~135도)로 12예에서 13도의 증가, 6예에서는 변화가 없었으며, 10예에서는 평균 29도의 감소를 보였다.

3. 방사선학적 평가

방사선학적으로는 Arnold 및 Hilgartner 분류를 이용

하여 술전과 최종 추시시를 비교하였는데 최종 추시시 2기 3예, 3기 17예, 4기 8예로 25예에서는 술전에 비해 변화가 없었고(Fig. 2), 3예에서 술전에 비해 진행하였는데, 1예에서는 2기에서 3기로, 2예에서는 3기에서 4기로 진행하였다.

4. 주관적 평가

주관적 평가는 최종 추시시 술전에 비해 significant 혹은 moderate improvement가 19예로 67.9%에서 주관적으로 만족스러운 결과를 보였다(Table 1).

5. 합병증

관절강직이나, 감염 등의 합병증은 없었으며 1예에서 혈관절증이 발생하여 관절 천자를 실시하였다. 최종 추시시 슬관절 전치환술을 실시한 예는 없었다.

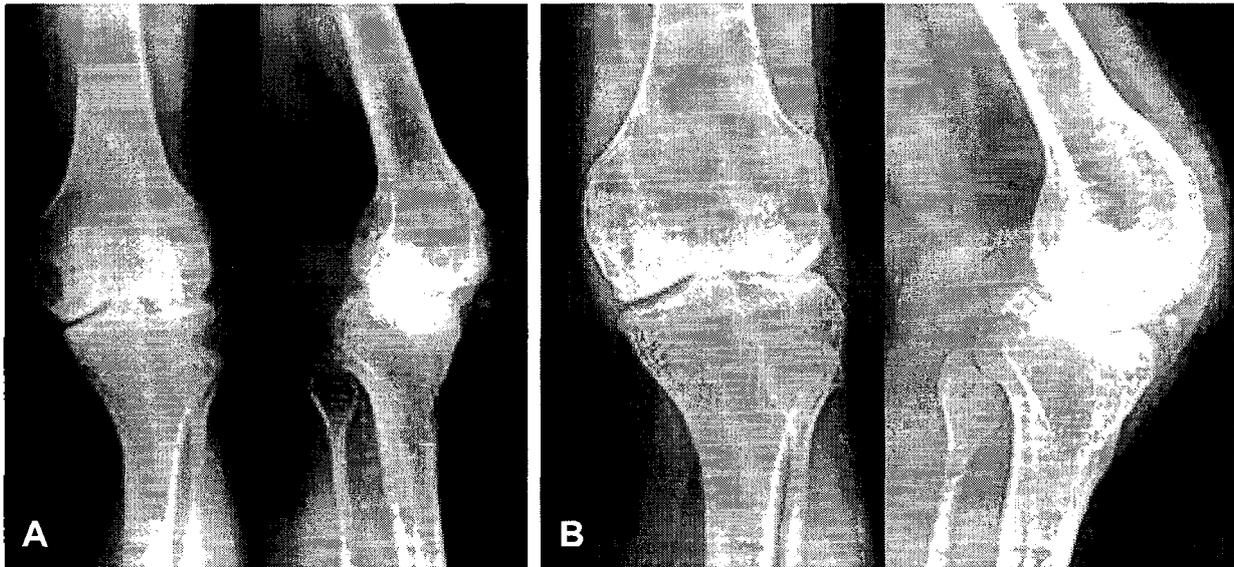


Fig. 2. (A) Preoperative radiograph of an 26-year-old patient with severe hemophilia A shows stage III radiographic findings. (B) There were no change and progression on radiograph taken at 3 years 5 months postsynovectomy.

Table 1. Subjective estimation of the operative result.

	Number of knee	Percent
Significant improvement	16	57.2
Moderate improvement	3	10.7
No improvement	6	21.4
Deterioration	3	10.7

고 찰

혈우병은 정형 외과적으로 관절강내, 관절 주위조직, 근육내 출혈을 일으키며, 이 중 관절강내 출혈이 가장 흔하며 모든 관절을 침범하나 슬관절, 주관절, 족근 관절, 고관절, 견관절 순으로 침범한다¹⁾. 혈우병은 8번 인자 또는 9번 인자의 혈중 농도에 따라 경도, 중등도, 중증으로 나눌 수 있다. 경도는 혈중인자가 정상의 5%이상인 경우로 출혈이 드물며 심한 외상에 의해서만 출혈이 야기된다. 중등도는 정상의 1~5%이며 1년에 5~6회 정도의 출혈이 발생하며, 경도의 외상에 의해서 출혈이 야기된다. 중증은 정상의 1%이하이며 1개월에 2~3회 정도의 출혈이 발생하며 외상없이 출혈이 발생할 수 있다. 혈우병성 관절염은 임상적으로 급성, 아급성, 만성으로 나눌 수 있는데, 급성은 대개 외상의 병력이 없으며 수 시간 동안 빠르게 진행하고, 적절한 혈액 응고 인자의 투여에 잘 반응하고, 아급성은 2회 이상의 출혈 후 발생하며 활액막의 비후와 관절 운동범위의 감소를 보인다. 만성은 아급성 관절염이 수개월에서 수년간 지속되어 발생하며 활액막염을 특징으로 하며 급성 출혈시 통증을 야기한다. 혈우병성 슬관절염의 진행은 Petterson 등¹⁰⁾에 의하면 3세 이전에는 방사선학적 변화가 극히 드물고, 3~6세에 방사선학적 변화가 나타나기 시작하여, 6세 이후부터 골성숙시까지 방사선학적 변화가 진행하며, 골성숙 이후에는 골관절염의 진행속도가 감소한다.

혈우병성 슬관절염의 치료는 크게 예방적 치료와 혈우병성 관절염이 발생한 후의 치료로 나눌 수 있다. 예방적 치료는 예방적으로 항혈우병 인자를 투여하여 혈중 농도를 정상의 1%이상 유지시킴으로써 자발적 출혈과 혈우병성 관절염의 발생을 예방하는 방법으로, 항혈우병 인자의 투여 시기는 저자에 따라 다소 차이가 있어서 2~4회의 출혈이 발생한 후에 투여하자는 의견과 혈우병이 진단된 후 즉시 투여하자는 의견이 있다. 이미 혈우병성 슬관절염이 발생한 경우의 보존적 치료로는 항혈우병 인자의 투여, 비스테로이드성 소염 진통제, 관절 천자, 석고 부목, 물리 치료 등이 있으며 3개월에서 6개월간의 이러한 보존적 치료에도 활액막염이 지속되거나 출혈이 반복되는 경우에는 비수술적 또는 수술적으로 활액막을 제거하는 방법과 말기의 관절염에 대해서 관절유합술이나 슬관절 전치환술을 시행할 수 있다.

비수술적으로 활액막을 제거하는 방법으로는 colloidal P32, chromic phosphate, 90-Yttrium, 186-Rhenium, radioactive gold 등의 방사선 동위원소나 osmic acid, hyaluronic acid, rifampicine 등의 화학물질을 관절강내로 주입하여 활액막을 제거하는 방법이 있다. 이는 외래에서 간편히 시행할 수 있고, 필요에 따라 반복적으로 시행할 수 있는 장점이 있으나 방사선 동위원소 경우에는 방사선 노출 위험과 방사선 동위 원소를 쉽게 구할 수 없는 단점이 있다.

수술적으로 활액막을 제거하는 방법으로는 관혈적 방법과 관절경적 방법이 있다. 관혈적 활액막 제거술은 Storti 등¹¹⁾이 1969년 처음 실시하여 1969년 이의 결과로 관절 기능의 개선과 출혈 빈도의 감소를 보였다고 보고하였다. 그러나 Storti 등¹¹⁾과 여러 저자들^{2,4,5,6,11,12)}에 의하면 관혈적 활액막 제거술 후 출혈의 빈도는 감소하지만 관절 운동 범위의 감소와 혈관결중, 감염, 골절 등의 합병증이 발생하는 단점이 있다. 1970년대 관절경 수술기법의 발달로 1980년 혈우병성 관절염의 치료로 관절경 활액막 제거술을 대신하여 관절경적 활액막 제거술이 최초로 실시되었고, Wiedel¹³⁾은 관절경적 활액막 제거술이 출혈의 빈도를 감소 시킴과 동시에 관절 운동 범위를 유지 및 개선시킨다고 보고하였다.

관절경적 활액막 제거술은 관혈적 방법에 비해 술후 합병증이 적고 조기 재활이 가능하여 회복이 빠른 장점이 있는데 이를 위해서는 관절내 전방구획 뿐만 아니라 후방구획을 포함한 보다 완전한 활액막 제거술이 필요하나 골과 관절의 변형, 연부조직의 섬유화 등으로 수술 수기가 쉽지 않은 단점이 있다. 저자들은 6부위의 portal (two anterior, two suprapatellar and two posterior)과 posterior trans-septal portal을 이용하여 전방 구획은 물론 후방 구획을 포함하여 가능한 모든 병적인 활액막을 제거하려고 하였다.

Triantafyllon 등¹⁴⁾은 8예의 관혈적 활액막 제거술과 5예의 관절경적 활액막 제거술을 실시하여 그 결과를 비교하였는데 관혈적 또는 관절경적 활액막 제거술을 실시한 두 군 모두에서 출혈 빈도의 감소를 보였으나, 관혈적 활액막 제거술을 실시한 8예 중 5예에서 평균 24도의 관절 운동 범위 감소, 2례에서 평균 5도의 관절 운동범위 증가, 1예에서는 변화가 없었고, 반면에 관절경적 활액막 제거술을 실시한 5예 중 4예에서 평균 55도의 관절 운동범위 증가, 1예에서 25도의 관절 운동범위 감소가 있었음을 보고하였다. 본 연구에서는 평균 3년 11개월 추시시 평균 1도의 굴곡 구축의 감소와 평균 5도의 후속 굴곡의 감소를 보여 대체적으로 관절 운동범위가 유지됨을 관찰할 수 있었다. Thomas 등¹⁵⁾은 관절경적 활액막 제거술 후 즉시 continuous passive motion (CPM)과 물리치료를 시행하여 대부분의 환자에서 관절 운동 범위가 유지되거나 증가하였음을 보고하였는데, 저자들의 경우도 술후 2일에 CPM과 능동적 관절운동을 실시하여 최대한 관절 운동범위를 유지하려고 하였다.

Kenneth 등¹⁶⁾에 의하면 활액막 제거술에 의하여 혈우병성 관절염의 경과를 변화시키기는 어렵고 Arnold-Hilgartner stage III 이하에서 좋은 결과를 보인다고 한다. Wiedel¹³⁾도 관절경적 활액막 제거술을 실시한 9예의 10~15년 장기 추시결과 관절경적 활액막 제거술은 혈우병성 슬관절염의 진행을 늦출 수는 있으나 정지시키지는 못

한다고 하였다. 본 연구에서는 방사선학적으로 평균 3년 11개월 추사에서 28예 중 25예에서는 변화가 없었고, 1예에서는 stage II에서 III로, 2예에서는 stage III에서 stage IV로 진행하였다. 그러나 추시기간이 비교적 짧은 관계로 관절경적 활액막 제거술이 혈우병성 슬관절염의 경과에 미치는 영향에 대해서는 장기적인 추시가 필요할 것으로 생각된다.

결 론

혈우병성 슬관절염 환자에서 관절경적 활액막 제거술은 적절한 항혈우병 인자의 투여와 수술 수기를 통해서 합병증이 적고, 출혈의 빈도와 동통의 감소 및 관절 운동범위를 유지할 수 있는 효과적인 치료 방법이라 사료된다. 그러나 장기적으로 혈우병성 슬관절염의 진행에 미치는 영향에 대해서는 보다 장기적인 추시가 필요할 것으로 사료된다.

REFERENCES

- 1) **Arnold WD, Hilgartner MW:** Hemophilic arthropathy: Current concepts of pathogenesis and management. *J Bone Joint Surg.* 59-A:287, 1977.
- 2) **Clark M:** Knee synovectomy in hemophilia. *Orthopedics.* 1:285, 1978.
- 3) **Hilgartner MW:** Current treatment of hemophilic arthropathy. *Current Opinion in Podiatrics.* 14:46-49, 2002.
- 4) **Kay L, Stainsby D, Buzzard B:** The role of synovectomy in the management of recurrent haemarthroses in haemophilia. *Br J Haematol.* 49:53, 1981.
- 5) **Kenneth SK, Christopher MA, Hugh CK:** Long term follow-up of arthroscopic synovectomy for chronic hemophilic synovitis. *Arthroscopy.* 3(4):231-236, 1987.
- 6) **Lofqvist T, Nilsson IM and Petersson C:** Orthopedic surgery in hemophilia. *Clin Orthop.* 332:232-241, 1996.
- 7) **Luck JV, Kasper CK:** Surgical management of advanced hemophilic arthropathy. *Clin Orthop.* 242:60-82, 1988.
- 8) **McCullough N, Enis J, Lovitt J:** Synovectomy or total replacement of the knee in hemophilia. *J Bone Joint Surg.* 61A:69, 1979.
- 9) **Montane I, McCullough N, Chun-Yet Lian E:** Synovectomy of the knee for hemophilic arthropathy. *J Bone Joint Surg.* 68A:210, 1986.
- 10) **Petterson H, Ahlberg A, Nilsson IM:** A radiographic classification of hemophilic arthropathy. *Clin Orthop.* 149:152, 1980.
- 11) **Pietrogrande V, Dioguardi N, Mannucci P:** Short term evaluation of synovectomy in haemophilia. *Br Med J.* 2:278, 1972.
- 12) **Rodriguez-Morchan EC:** Methods to treat chronic hemophilic synovitis. *Hemophilia.* 7:1-5, 2001.
- 13) **Sneppen O, Beck H, Holsteen V:** Synovectomy as a prophylactic measure in recurrent haemophilic haemarthrosis. *Acta Paediatr Scand.* 67:491, 1978.
- 14) **Storti E, Ascari E, Gamba G:** Postoperative complications and joint function after knee synovectomy in haemophiliacs. *Br J Haematol.* 50:544, 1982.
- 15) **Storti E, Ascari E:** Surgical and chemical synovectomy. *Ann NY Acad Sci.* 240:316, 1975.
- 16) **Storti E, Traldi A, Tosatti E, Davoli P:** Synovectomy a new approach to hemophilic arthropathy. *Acta Haematol.* 41:193, 1969.
- 17) **Thomas JL, Limbird, Steven CD:** Synovectomy and continuous passive motion in Hemophilic patients. *Arthroscopy.* 3(2):74-77, 1987.
- 18) **Triantalylion S, Hanks G, Handal J, Greer III R:** Open and arthroscopic synovectomy in hemophilic arthropathy of the knee. *Clin Orthop.* 283:196, 1992.
- 19) **Wiedel FD:** Arthroscopic synovectomy: state of art. *Haemophilia* 8:372-374, 2002.
- 20) **Wiedel J:** Arthroscopic synovectomy in hemophilic arthropathy of the knee. *Scand J Haematol.* 33:263, 1984.
- 21) **Wiedel J:** Arthroscopic synovectomy of the knee in hemophilia. 10-15 year follow up. *Clin Orthop.* 328:46-53, 1996.



목적: 혈우병성 슬관절염 환자에 대해서 관절경적 활액막 제거술을 시행한 후 임상적 결과를 분석하고자 한다.

대상 및 방법: 1996년 1월부터 2001년 1월까지 혈우병성 슬관절염으로 관절경적 활액막 제거술을 시행 받은 환자 중 1년 6개월 이상 추시가 가능하였던 26명 28례를 대상으로 하였다. 평균 연령은 17.8세 (8~37세), 추시 기간은 평균 3년 11개월 (1년 7개월~6년 7개월)이었다. 수술은 전 레에서 6부위의 portal (two anterior, two suprapatellar and two posterior)과 posterior trans-septal portal을 사용하였다.

결과: 출혈의 빈도는 수술 전 평균 1개월에 4회에서 최종 추시 시 2회로 감소하였고, 항혈우병 인자의 투여량은 수술 전 평균 1개월에 4,633 units에서 최종 추시 시 1,505 units로 감소하였다. 운동범위는 수술 전 평균 112도, 최종 추시 시 평균 107도였다. 방사선학적으로는 최종 추시 3례에서 수술 전에 비해 혈우병성 관절염이 진행하였다. 환자의 주관적 평가는 significant 혹은 moderate improvement 19례 (68%), no improvement 혹은 deterioration 9례 (32%)였다.

결론: 혈우병성 슬관절염 환자에서 관절경적 활액막 제거술은 합병증이 적고, 출혈의 빈도와 동통을 감소시키고 관절 운동 범위를 유지할 수 있는 효과적인 치료 방법이라고 사료된다.

색인 단어: 슬관절, 혈우병, 관절경적 활액막 제거술