

견관절에서 회전근 개 파열이 동반된 색소성 용모성 활액막염의 관절경적 치료 - 증례보고 3예 -

가톨릭대학교 의과대학 대전성모병원 정형외과학교실, 영상의학교실*

지종훈 · 김원유 · 한창환 · 김영울 · 김승준 · 김지창*

— Abstract —

Arthroscopic treatment of Pigmented Villonodular Synovitis with combined Rotator Cuff Tear - 3 Case Reports -

Jong-Hun Ji, M.D., Weon-Yoo Kim, M.D., M.D., Chang-Hwan Han, M.D.,
Young-Yel Kim, M.D., Seung-Jun Kim, M.D. Ji-Chang Kim, M.D.,*

Department of Orthopedic Surgery, Department of Radiology,*
Daejeon St. Mary's Hospital, The Catholic University of Korea, Daejeon, Korea

Most pigmented villonodular synovitis (PVNS) is occurred in knee joint and finger of hand. PVNS is rarely occurred in shoulder joint. In English and French literatures, less than 30 cases were reported. We report 3 PVNS cases with rotator cuff tears, which was treated by arthroscopic extensive synovectomy, debridement and rotator cuff repair. The PVNS with rotator cuff tear in shoulder joint was rarely reported in the Korean literature.

Key Words: Pigmented villonodular synovitis, Shoulder joint, Rotator cuff tears

색소성 용모성 활액막염은 주로 슬관절과 수부의
의 수지에서 호발하는 질병이다. 견관절에는 드물
게 발생하고 있으며 최근까지의 외국 논문에서도
약 30례미만의 증례들만 보고되고 있다. 본원에
서는 회전근 개 파열이 동반된 색소성 용모성 활

액막염을 3예 경험하여 이를 보고하고자 한다.

증례 1

66세 여자환자로 3~4년 전부터 우측 어깨 통

※통신저자: 김 지 창*

대전광역시 중구 대흥동 520-2

가톨릭대학교 의과대학 대전성모병원 영상의학교실

Tel: 042) 220-9530, Fax: 042) 221-0429, E-Mail: Jichangni@dreamwiz.com

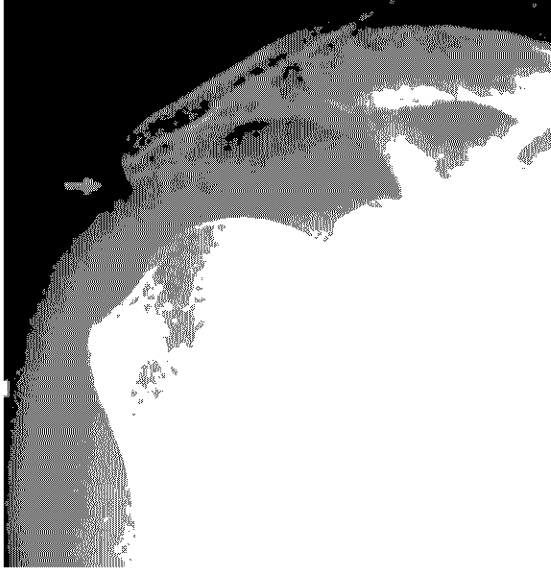


Fig. 1. Plain radiography of right shoulder shows subcondral erosion in great tuberosity of humeral head and acromion(arrow).

증이 있어 오다가 최근 6개월전부터 통증이 심해졌으며 내원 20일전부터 무리한 일을 한후 심한 통증과 운동제한을 주소로 내원하였다. 이학적 검사상 견봉전면에 부종과 가벼운 열감이 있었으며 개인병원에서 약 4회 흡인 천자시행하여 약 20 cc의 밝은 색깔의 피가 섞인 관절액(brightly red bloody fluid)인 혈관절증(Hemarthrosis)이 관찰되어 전원되었다. 내원시 시행한 염증 반응 검사에서 ESR은 15 mm/hr 및 CRP는 0.1 mg/dl로 정상소견이었다. 단순 방사선 검사상 상완골 대결절의 골극형성과 함께 견봉하면의 골미란(bony erosion)이 뚜렷하게 관찰되었다(Fig. 1). MRI 소견상 회전근 개의 파열과 함께 견봉하 점액낭의 활액막이 두꺼워져 있었고 T2 강조영상에서 저음영으로 보이는 부분들이 관찰되어 색소성 용모성 활액막염(PVNS)을 의심할 수 있었다. 조영증강 후에는 두꺼워진 활액막이 강하게 조영증강되는 것을 볼 수 있었다(Fig. 2).

수술 소견: 관절경 소견상 외상완 관절 전반에 걸쳐서 특히 회전근 개 간격(rotator interval)

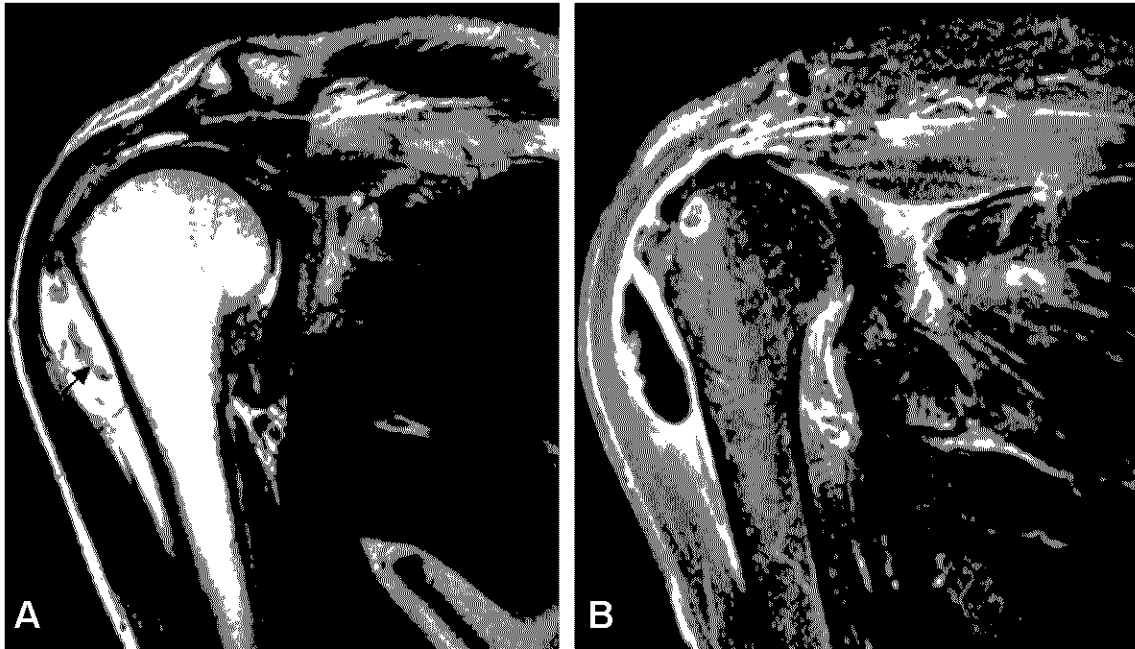


Fig. 2. MRI finding. (A) T2 weighted oblique-coronal image demonstrates thickened low signal intensity of synovium in the subdeltoid bursa(arrow). Associated full thickness rotator cuff tear are also seen. (B) Nodular synovial thickening and enhancement is noted on the Gd-enhanced T1 weighted image.

전하방 관절낭 및 후상방 및 후하방 관절낭 주위로 황갈색의 비후해진 용모들이 전 관절에 걸쳐서 퍼져있는 미만형(diffuse type)의 PVNS 소견이 관찰되었다. 전후방 관절경 삽입구를 통하여 관절경을 옮겨가며 철저한 변연 절제술을 시행하였으나 전하방이나 후하방의 심부에는 절삭기가 도달하기가 어려운 부위도 있었다. 이어 견봉하 공간으로 관절경을 옮긴후 견봉하 점액낭을 포함하여 변연절제술을 시행하였다. 특히 견봉하 공간에서는 황갈색의 두꺼워진 점액낭과 견봉하 점액낭 아래로도 황갈색의 용모들이 퍼져 있었으며

(Fig. 3B) 회전근 개는 파열은 약 5×4 cm 크기로 관찰되었다. 특징적으로 단순 방사선 사진에서 관찰되었던 견봉의 골변형 소견들은 관절경 소견상 견봉 밑면에 골침식으로 보여 졌으며 이 안에는 황갈색의 활액막이 침범하여 침식부위를 덮고 있었다(Fig. 3A). 견봉하면의 골침범 부위의 활액막을 큐렛으로 제거한 후 견봉성형술을 시행하였다. TwinFix® anchor (Smith & Nephew Endoscopy, Andover, MA) 를 이용하여 회전근 개 봉합술을 시행하였다(Fig. 3C).

술후 종양의 완전한 제거가 되기는 힘든 상태로

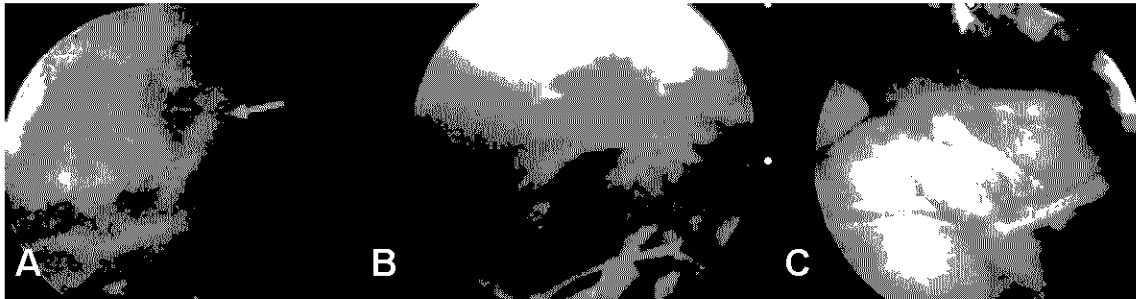


Fig. 3. Arthroscopic finding of rotator cuff repair. (A) Yellow-brownish clored synovial remnant was vivible behind the repaired tendon. (B) Arthroscopic finding of gray-yellow colored thickened synovial bursa in the subacromial bursa.(C) Arthroscopic finding of subacromial bony erosion which was invaded by yellow-brownish synovial inclusion.

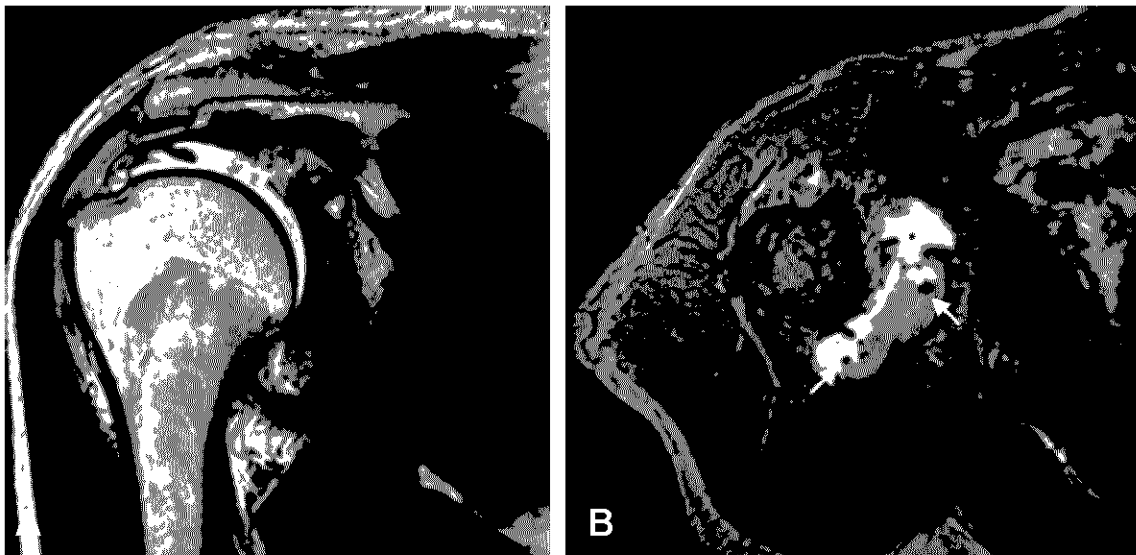


Fig. 4. T2 weighted coronal image (A) and gradient echo image (B) demonstrate marked thickening of synovium and multiple low signal intensity of hemosiderin depositions (white arrows). Full thickness of rotator cuff tear is also noted.

판단되어 1개월간 20회에 걸쳐 총 3600 cGy의 방사선치료를 병행하였다. 6개월뒤 촬영한 추시 MRI 소견상 종양의 크기는 상당히 감소되었으나 회전근 개는 재파열된 상태로 관찰되었다. 현재 수술 1년 6개월이 경과한 상태로 환자는 통증을 호소하지는 않으며, 운동범위는 전방 거상 170도, 외전 170도, 외회전 20도 및 내회전 제 1 요추 수준으로 향상되었다. 술전 UCLA 점수 및 ASES 점수는 7점 및 11.7점에서 현재 1년 6개월이 경과한 상태로 각각 32점 및 93.3점으로 향상되었다.

증례 2

54세 남자환자로 8개월전 무거운 물건을 들면서 진행된 우측 견관절의 통증을 주소로 내원하였다. 회전근 개 질환의 증상 및 이학적 검사 소견을 보였으며 단순 방사선 검사상 제 3형의 견봉(keel spur)이 관찰되었다. MRI 검사를 시행한 결과 색소성 용모성 활액막염을 동반한 회전근 개 파열이 관찰되었다(Fig. 4). 관절경 소견상 미만형이었으며 이두박근 장두근의 파열과 회전근 개 파열이 관찰되어 이두박근 고정술 및 회전근 개 봉합술을 시행하였다. 관절경하에서 변연 절제술 및 소파술을 시행하였으며 1개의 Fastin RC® anchor(Mitek)를 이용하여 회전근 개 봉합술을 시행하였다. 술전 VAS 점수는 8점에서 2점으로

호전되었으며, 술전 UCLA 점수 및 ASES 점수는 25점 및 10점에서 수술후 현재 1년이 경과한 상태로 각각 100점 및 35점으로 향상되었다. 술후 1년째 추시한 MRI소견에서도 종양의 크기는 상당히 감소된 것으로 관찰되었으며, 병리학적 소견상 PVNS로 확인되었다(Fig. 5).

증례 3

71세 여자 환자로 10년전부터 우측 견관절에 통증을 호소하다가 최근 6개월전부터 심한 운동제한과 통증이 악화되어 내원하였다. 이학적 검사상 운동범위는 전방굴곡 120도, 외전 150도, 내회전 제 3 요추수준으로 제한되어 있었으며, 충돌 징후 검사상 모두 양성 소견을 보였으며 회전근 개 파열이 의심되는 소견을 보였다. 단순 방사선 소견상 제 3형의 견봉 형태가 관찰되었으며 30도 caudal tilt 영상에서 견봉하면에 골침식 소견이 뚜렷하게 관찰되었다(Fig. 6). 관절경 소견상 미만형의 PVNS가 관찰되었으며, 견봉하면의 골침식이 뚜렷하게 관찰되었는데, 침식부위는 황갈색의 병변으로 덮혀있어 큐렛으로 병변부위를 조심스럽게 긁어내어 조직 검사를 시행하여 PVNS를 확진하였다(Fig. 7). 와상완 관절 전체에 용모성의 병변들이 관찰되었으며 약 3×3 cm 크기의 종파열의 회전근 개 파열로 2열 봉합술을 시행하였다(Fig. 7). 현재 술후 1년이 경과한 상태로 전

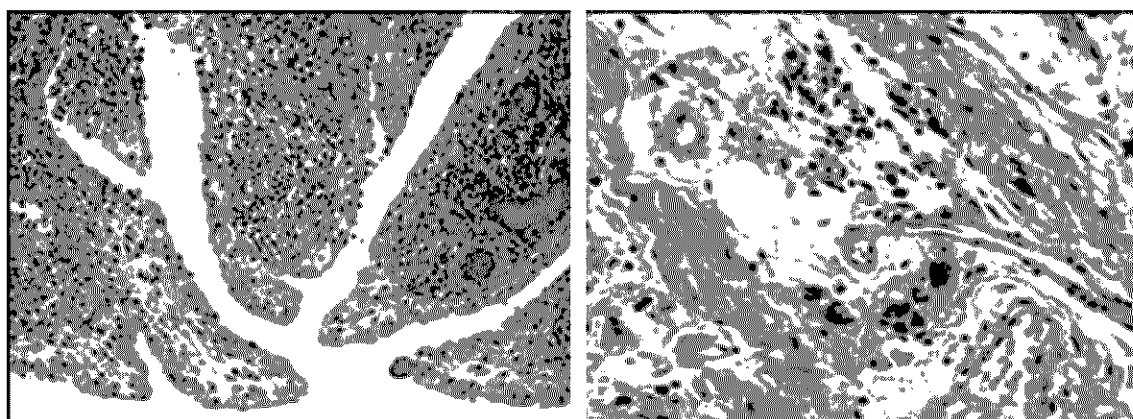


Fig. 5. (A) There are papillary projections lined by synovial cells and made up chronic inflammatory cells.(× 200)
(B). Microscopic finding shows several hemosiderin-laden macrophages.(× 400).

방 굴곡 160도 외전 150도 내회전 제 1요추 수준으로 운동 범위는 향상되었으며 술전 VAS 점수는 8점에서 2점으로 호전되었다. 술전 ASES 점수 및 UCLA 점수는 각각 15점과 11점에서 84점 및 31점으로 호전되었으며 재발의 증거는 관찰되지는 않고 있다. 견봉하골의 골미란 부위의 조직 검사에서는 색소성 용모성 활액막염으로 확진 되었다.

고 찰

색소성 용모성 활액막염은 건막 거대 세포종 (giant cell tumor of tendon sheath) 또는 활액막 황색종(synovial xanthoma)이라고도 불린다^{3,4,11,13}. 주로 관절 활액낭이나 건막의 활액막에 결절성 구조를 형성하는데 결절의 내부에는 혈철소(hemosiderin), 콜레스테롤 및 다핵성 거대 세포가 침범하여 노란색 및 황갈색을 띠면서 용모의 증식을 가져오는 질환으로 연부 조직의 종양으로 취급된다. 이 질환은 30~40대에 호발하며 남녀가 비슷하게 발생된다^{11,13,17}. 주로 큰 관절인 슬관절, 고관절과 같은 하지에서 호발하나, 작은 관절, 건초나 점액낭에서도 발생되며, 수부나 완관절과 같은 상지에서 발생하는 경우에는 건활막(tenosynovium)을 침범한다⁹. 견관절에서 발생하는 빈도는 2%미만으로 보고되며 남녀 비는 같은 것으로 되어 있으며, 주로 50대이상에서 발생하는 것으로 알려져 있다¹². 견관절에서 PVNS는 드문 질환으로 특별한 증상이 없기 때문에 증상의 발현에서 정확한 진단까지 오랜 기간이 걸리게 되는데 평균 3~4년이 걸리게 된다^{5,8,19}. 본 증례의 환자들에서는 견관절 증상이 8개월에서 10년전부터 있어왔으며, 증례 2의 젊은 환자의 경우 이환 기간이 8개월로 짧았으며 증례 3의 71세 환자에

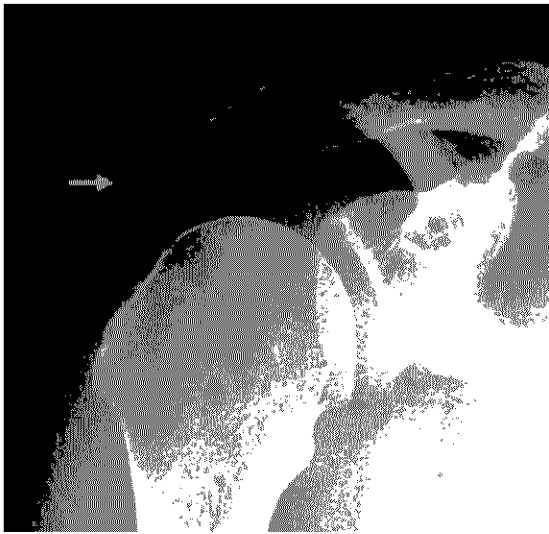


Fig. 6. Plain radiography of right shoulder shows severe subcondral erosion in great tuberosity of humeral head and acromion(arrow).

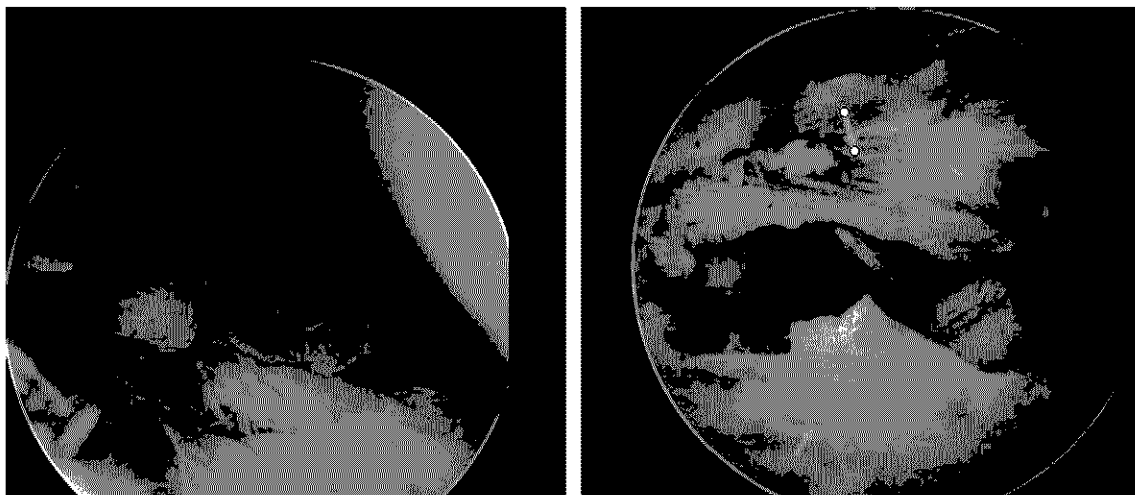


Fig. 7. Arthroscopic photograph of the shoulder confirms the presence of a diffuse and villous form of PVNS and rotator cuff tear in consistent with MR finding.

서는 10년전부터 증상이 있어왔던 경우이다. 증례 1의 환자에서는 내원 3~4년전부터 어깨 통증이 있어오다가 2주전부터 발생한 견관절의 부종과 심한 통증으로 개인병원에서 4회의 견관절 천자를 시행하여 각각 20 cc의 혈관절증(hemarthrosis)이 관찰되었다. 심한 통증, 열감, 부종이 관찰되어 먼저 감염을 의심하였던 경우로, 혈액 검사상 모두 정상 소견을 보여 염증의 가능성은 배제되었던 경우이다. 증례 2의 환자는 8개월전부터 회전근개 질환 소견을 보였으며 단순 방사선 검사상 제 3형의 견봉 골극이 관찰되었던 환자로 MRI를 시행하여 우연하게 PVNS가 의심되는 소견을 발견하였던 경우이며 증례 3의 환자는 이학적 검사상 회전근개 파열 소견이 의심되는 환자로 견봉하면의 골미란이 심하였던 경우이다. 증례 1과 3의 환자 모두에서 30도 caudal tilt view에서 심한 견봉골 침식이 발견되었는데, PVNS에서 견봉골 하면의 골침식은 중앙의 침범을 의심할 수 있는 특징적인 소견일 가능성이 높을 것으로 추정된다. 이 경우 미만형의 병변이 견봉하 공간으로 회전근개 파열부위를 통하여 파급된 후 장기간에 걸친 중앙의 자극등으로 견봉하면에 골침식을 유발시킨 것으로 추정되며, 골침식 부위에 황갈색의 활액막으로 덮혀있었으며, 이 활액막을 벗겨내어 조직검사를 시행하여 PVNS로 확인할수 있었다. 이러한 골침식된 골내 병변에 침범된 활액막(intraosseous diseased synovium)에 혈류공급을 차단하기 위하여 골침식 부위를 완전하게 골소파술을 시행하였다.

PVNS는 국소형(localized form)과 미만형(diffuse form)이 있으며, 특히 견관절에서는 미만형이 대부분으로 주로 관절내 병변이며, 예외적으로 완전한 관절외 병변은 2예가 보고되고 있다^{9,18}. 미만형은 때때로 회전근개 파열과 동반되지만(28예중 9예), 국소형의 경우에서는 회전근개 파열이 없는 것으로 관찰되고 있다¹². 본 증례에서는 모두 회전근개 파열이 동반되어 있었다. 현재까지 파열의 기전은 명확하게 밝혀지지는 않았으나 중앙이 진행하여 회전근개 파열에 영향을 주거나 또는 견봉골극이나 coracoacromial arch의 외인적 충돌에 의한 2차적인 회전근개 파열의 가능성을 고려해 볼수 있을 것으로 생각

된다¹⁹. 이번 증례의 환자들에서도 회전근개에는 다른 일반적인 회전근개 파열 환자들과 비교하여 차이가 없었으며, 30도 caudal tilt 상 및 supraspinatus outletview에서 제 3형의 견봉골극이 관찰되어 충돌증후군에 의한 회전근개 파열의 상관관계가 높을 것으로 추정된다.

PVNS의 단순 방사선 소견은, 관절 주위의 종창과 연부 조직 지방의 전위된 소견을 보이며 병변의 형태와 병기에 따라 골침식 또는 골경화 소견으로 둘러싸인 연골하 낭종이나 관절 주위 낭종 때때로 다낭포 변화가 상완골두에 나타나거나, 관절의 양쪽 면을 포함할수도 있다. 종종 관절내의 퇴행성 변화를 유발하여 관절 연골의 두께감소, 반응성 골형성으로 연골하골이 두꺼워지고 골극형성의 소견을 보이기도 한다⁴. 이러한 경우 류마티스 관절염, 결핵성 관절염, 골관절염, 골내 결절종이나 거대세포종들이 감별해야 한다.

PVNS에 의한 증상은 부종이나 혈관절증외에는 뚜렷하지 않았으며 MRI 검사를 하기 전에는 단순히 감염이나 회전근개 질환을 의심하였던 경우들이다. 기존의 보고에 의하면 운동제한을 유발할 정도의 통증이 동반된 커지는 종괴^{10,16,20}, 급성 부종¹⁸, 통증이 동반된 아탈구⁷, 충돌증후군¹⁹ 및 수술중 우연히 발견되는 경우^{5,7,13} 등 다양한 임상 증상을 나타내고 있다. 1번 증례의 환자에서는 골침식등이 동반되었던 경우로 관절경하 변연절제술로 완전한 중앙적출이 어려웠던 것으로 판단하여 방사선 치료를 병행하였으며, 추시한 MRI 소견상 재발은 관찰되지 않았다. Xavier등은 환자의 연령이나 파열크기를 고려하여 회전근개 봉합술을 시행하지 않았으나¹² 본 3증례의 환자에서는 모두 봉합술을 시행하였다.

PVNS의 치료는 비활동성인 경우에는 병소내 절제술, 활동성이 경우 변연부 절제술, 공격적인 경우에는 광범위 절제술이 권장되나, 이는 병소, 활액막, 활액막하 윤문상 조직을 전부 절제해야 되는데, 이는 현실적으로 불가능하며 오히려 후유증이 남게 되어, 활액막의 부분적 절제술 후 화학치료나 방사선 치료등의 보조요법을 시행한다^{3,12}. 국소형의 경우 부분적 활액막 절제술등으로 좋은 결과를 보고하고 있으며 확산형의 경우 광범위 절제술, 인공 관절 치환술 및 방사선 치료등이 있

며 수술후의 전반적인 예후는 좋으며 재발은 드문 것으로 보고되고 있다^{1,7,21)}. 견관절의 관절경적 치료는 개방적 치료에 비하여 fluid-control system으로 관절을 팽창시켜며 견인을 한 상태로 여러군데의 앞뒤 삽입구를 이용하여 관절내 구석구석의 종양을 제거 할수 있어서, 특히 개방적 제거술로 도달하기 어려운 전하방, 후상방 및 후하방의 관절낭도 도달할수 있기 때문에 더욱 선호되는 경향이 있다. 본 중례에서도 미만형으로 광범위한 관절경적 활액막 절제술을 시행하여 철저하게 제거하였으나 견봉하 공간에서 견갑골 극 부위나 오구 돌기 부위의 병변 및 전하방 관절낭부위는 도달하기 어려워 병변의 완전한 제거가 어려운 부위로 주의하여 소파술을 시행하였다. 중례 1과 3에서는 미만형의 PVNS였으며 특징적으로 병변이 견봉골 하면에 침범되어 골소파술 및 견봉성형술로 골침범 부위를 제거하였던 경우이다

결론적으로 견관절에서 회전근 개 파열이 동반된 PVNS는 드물게 보고되고 있으며 개방적 절제술로 제거하기 어려운 부위들 특히 외상완 관절의 후하방 및 전상방, 전하방 및 견봉하 공간에서 견갑골 극 주변이나 오구돌기부근등의 도달하기 어려운 부분까지 철저한 변연절제술을 시행할수 있으며 동시에 회전근 개 봉합술을 시행할수 있는 관절경 치료법이 매우 유효한 치료법으로 생각된다.

REFERENCES

- 1) **Atmore WG, Dahlin DC and Ghormley RK:** Pigmented villonodular synovitis, a clinical and pathologic study. *Minn Med*, 39:196-202, 1956.
- 2) **Beguin J, Locker B, Vielpeau C and Souquieres G.:** Pigmented villonodular synovitis of the knee, Results from 13 cases. *Arthroscopy*, 5:62-64, 1989.
- 3) **Cheng JC, Wolf EM, Chapman JE and Johnston JO:** Pigmented villonodular synovitis of the shoulder after anterior capsulolabral reconstruction. *Arthroscopy*, 13:257-261, 1997.
- 4) **Cotten A, Flipo R, Mestdagh H and Chastanet P.:** Diffuse pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Skeletal radiol*, 24:311-313, 1995.
- 5) **Dorwart RH, Genant HK, Johnston WH and**

- Morris JM:** Pigmented villonodular synovitis of the shoulder: radiologic - pathologic assessment. *AJR Am J Roentgenol*, 143:886-888, 1984.
- 6) **Ekman E, Cory J and Poehling G:** Pigmented villonodular synovitis and synovial chondromatosis arthroscopically diagnosed and treated in the same elbow. *Arthroscopy*, 13:114-116, 1997.
- 7) **Flandry F and Norwood LA:** Pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Orthopedics*, 12:715-718, 1989.
- 8) **Johansson JE, Ajjoub S, Coughlin LP, Wener JA and Cruess RL:** Pigmented villonodular synovitis of joints. *Clin Orthop, Mar*; 163:159-166, 1982.
- 9) **Konrath GA, Nahigian K and Kolovich P:** Pigmented villonodular synovitis of the subacromial bursa. *J Shoulder Elbow Surg*, 6:400-404, 1997.
- 10) **Levin EJ and Gannon W:** Diffuse villonodular synovitis of the shoulder. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med*, 89:1302-1304, 1963.
- 11) **Muller LP, Bitzer M, Degreif J and Rommens PM:** Pigmented villonodular synovitis of the shoulder, review and case report. *Knee Surg Sports Traumatol arthrosc*, 7:249-256, 1999.
- 12) **Mahieu X, Chaouat G, Blin JL, Frank A and Hardy P:** Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Arthroscopy*, 17:81-7, 2001.
- 13) **Muller T, Victor J, Van den Bergh J and Fabry G:** Diffuse pigmented villonodular synovitis of the shoulder, A case report and review of the literature. *Acta Orthop Belg*, 58:93-96, 1992.
- 14) **Olgive-Harris DJ, McLean J and Zarnett ME:** Pigmented villonodular synovitis of the knee. The results of total arthroscopic synovectomy, partial synovectomy, and arthroscopic local excision. *J Bone Joint Surg*, 74-A:119-123, 1992.
- 15) **Palazzo P, Cotton R, Deacon O, Lowy M, Newman P, Sisson H, Thomson A:** The diagnosis and treatment of pigmented villonodular synovitis. *J Bone Joint Surg*, 50-B:290-305, 1968.
- 16) **Pantazopoulos T, Stavrou Z, Stamos C, Kehayas G and Hartofilakidis-Garofalidis G:** Bone lesions in pigmented villonodular synovitis. *Acta Orthop Scand*, 46-4:579-92, 1975.
- 17) **Robert DB and Barabara NW:** MR imaging of arthritides affecting the shoulder. *MRI Clin N Am*, 5:861-879, 1997.

- 18) **Sawmiller C, Turowski G, Sterling A and Dudrick S:** Extraarticular pigmented villonodular synovitis of the shoulder, A case report. *Clin Orthop*, 335:262-267, 1997.
- 19) **Schwartz HS, Unni K and Pritchard DJ:** Pigmented villonodular synovitis. A retrospective review of affected large joints. *Clin Orthop*, 247:243-255, 1989.
- 20) **Sher M, Lorigan JG, Ayala AG and Libshitz HI:** Pigmented villonodular synovitis of the shoulder, Case report 578. *Skeletal Radiol*, 19:131-133, 1990.
- 21) **Snook GA:** Pigmented villonodular synovitis with bony invasion, A report of two cases. *JAMA*, 184:424-425, 1963.