

견관절 색소 용모 결절성 활막염의 관절경적 치료 - 증례 보고 -

건국대학교 의과대학 정형외과학교실[†]
성균관대학교 의과대학 삼성서울 병원 정형외과학교실

이승준[†] · 유재철* · 임경섭

Arthroscopic Treatment of Pigmented Villonodular Synovitis of the Shoulder - A Case Report -

Seoung-Joon Lee, M.D.[†], Jae Chul Yoo, M.D.* , Kyung-Sub Lim, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Konkuk University Hospital, Seoul, Korea[†]
Department of Orthopedic Surgery, Samsung Medical Center,
Sungkyunkwan University School of Medicine, Seoul, Korea

Pigmented villonodular synovitis (PVNS) is a benign proliferative lesion, involving synovial tissue in joints, tendon sheaths, and bursae. Pigmented villonodular synovitis is a rare and usually monoarticular condition and primarily affects the knee joint and hand. Polyarticular PVNS appears in less than 1% of all case and its occurrence in the shoulder is rare (<2%). We present a 64-year-old male who had pigmented villonodular synovitis of both shoulder joints, which was treated by arthroscopic total synovectomy.

Key Words: Pigmented villonodular synovitis, Shoulder, Arthroscopy

서 론

색소 용모 결절성 활막염(PVNS, Pigmented Villonodular Synovitis)은 관절이나 건초, 점액낭을 침범하는 양성 증식성 활막의 병변으로, 1941년 Jaffe 등에 의해 처음 보고되었다. 이는 슬관절 및 수부에 주로 발생하며, 견관절에서 발생하는 경우는 현재까지 세계적으로 28예만 보고

될 정도로 드물다. 1% 미만의 환자에서 동시에 두 관절 이상을 침범하는 것으로 보고되고 있으며, 실제로 양측 견관절을 동시에 침범하는 경우는 현재까지 그 보고를 찾아보기가 힘들다. 색소 용모 결절성 활막염의 치료는 종괴 절제 및 활막 전 절제술이 표준치료로 알려져 있으나 견관절의 경우 대해서는 적절한 수술적 치료의 방법 및 치료의 결과에 대한 정보가 적기 때문에 아직까지

※통신저자: 유 재 철*

서울특별시 강남구 일원동 50번지 135-710

성균관대학교 의과대학 삼성서울병원 정형외과학교실

Tel: 02) 3410-3509, Fax: 02) 3410-0061, E-Mail: coolshoulder@hotmail.com

논란이 많은 상태이다.

저자들은 양측 견관절에 동시에 발생한 색소 용모 결절성 활액막으로 내원한 64세 환자에 대해서 양측 견관절 관절경적 활액막 전 절제술을 시행하여, 이에 대해 수술 전 소견과 수술소견 및 임상 경과에 대해 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례 보고

64세 남자환자로 4개월 전부터 발생한 양측 견관절의 통증 및 종창을 주소로 내원하였다. 내원 시 시행한 신체검진상 양측 견관절의 종창 및 삼각근의 경한 위축 소견 관찰되었으며(Fig. 1), 양측 견관절의 거상 및 외전, 회전운동이 모두 감소되어 있었다. 특히 좌측 견관절의 경우는 종괴와 비슷하게 견관절 전방부의 돌출이 있었다. 단순 방사선 검사상 양측 상완골두 대결절에 경화소견 및 견갑 상완 관절의 퇴행성 변화 관찰되었으며, 좌측 상완골두 외측으로 2×2 cm 크기의 골낭종 소견이 관찰되었다(Fig. 2). 자기공명 영상(MRI) 검사상 양측 견관절에 전반적인 활액막 증식소견 및 관절내 삼출액의 증가, 관절내 비특이적인 결절성 종괴 소견이 관찰되었다. 또한 회전근개의 파열과

이와 관련한 관절내 병변의 건봉하 공간 및 특징적으로 삼각근으로의 파급 (invasion) 소견이 관찰되었다(Fig. 3). 이런 소견을 바탕으로 감염(low grade infection) 또는 종양 등을 의심할 수 있었다. 이에 진단 및 치료적 목적으로 관절경적 검사를 시행하였다. 관절경적 검사상 양측 관절외-상완골관절내 관절낭 전반에 걸친 특징적인 황갈색 색소 침착을 보이는 활액막 증식 소견이 관찰되어 활액막 증식 부분에 대해 집게 검자를 이용하여 조직

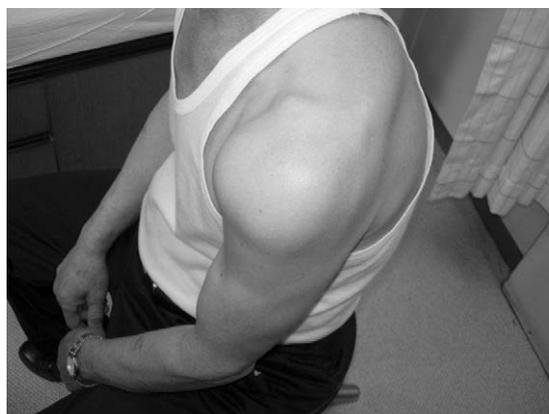


Fig. 1. Left shoulder area show huge swelling and bulging of the skin due to bursitis and PVNS.

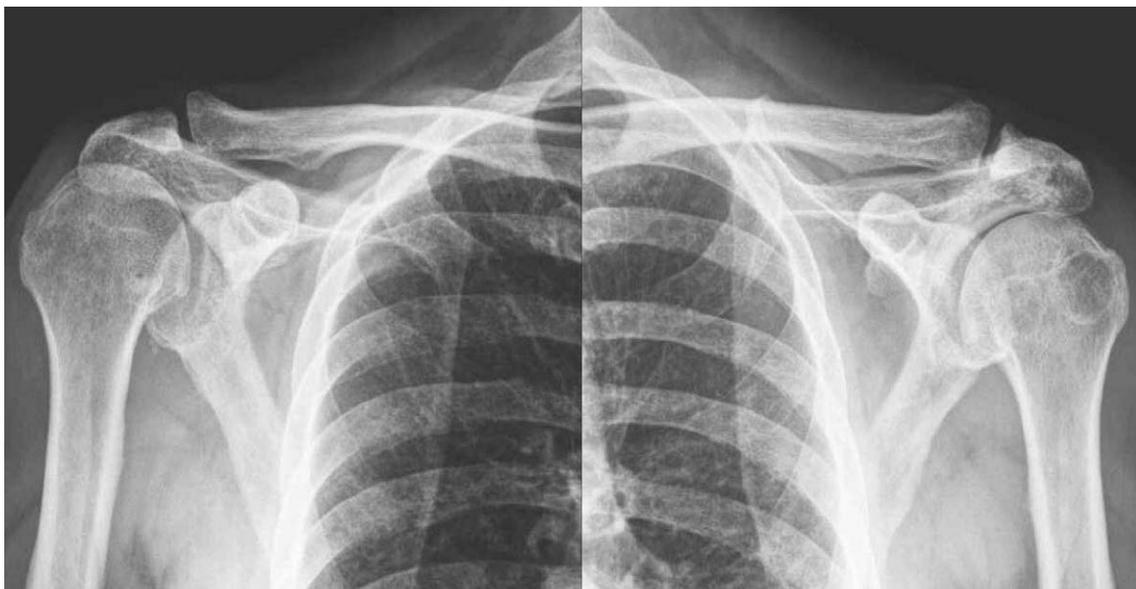


Fig. 2. Preoperative radiograph of both shoulder shows degenerative periosteal sclerosis combined with humeral head proximal migration and cystic lucency of left humeral head.

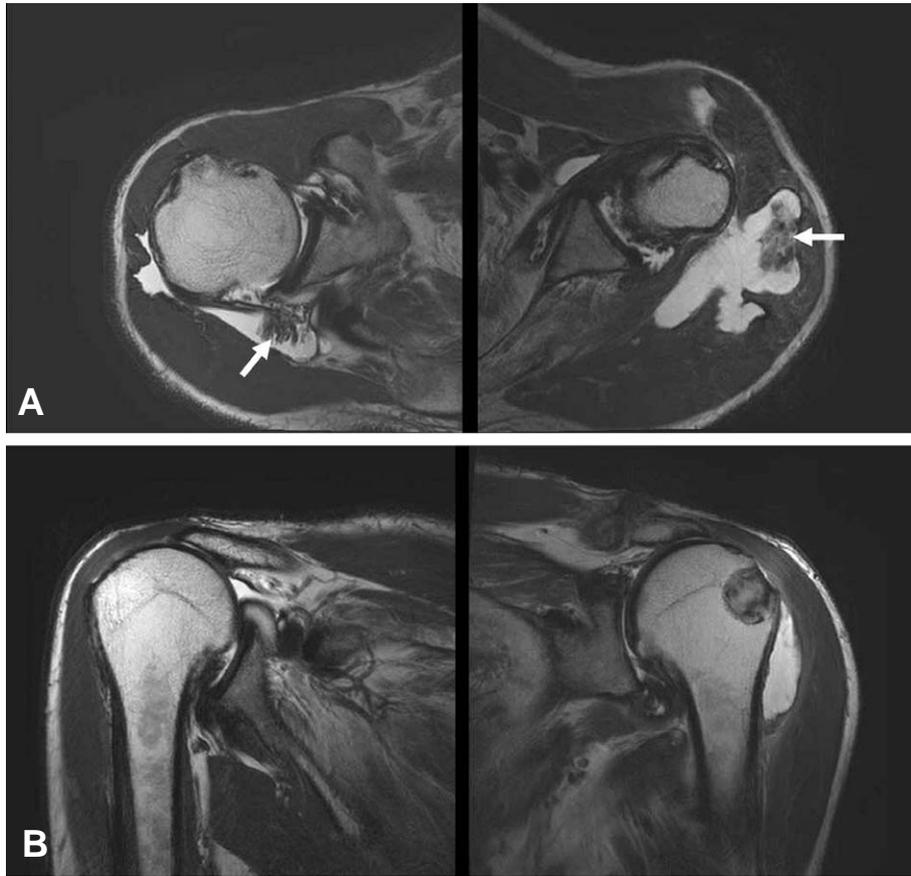


Fig. 3. (A) Preoperative axial MRI of both shoulders show diffuse synovial proliferation with deltoid muscle infiltration and pigmented soft tissue mass (arrow). (B) Preoperative coronal MRI of both shoulders show bilateral massive supraspinatus tendon tear and cystic mass on left humeral head.

검사 후 관절경적인 활액막 전절제술을 시행하였다(Fig. 4A-B, 5A-B). 또 만성적인 염증으로 인해 발생하였을 것으로 사료되는 관절내 유착이 전후방 관절낭 부분에 관찰되어 이에 대해 유착 해리술 시행하였다. 관절경적 견봉하 공간 관찰 시 양측 견관절의 회전근개 광범위 전층 파열이 있었으며(Fig. 4C, 5C), 또한 병변으로 파급되었을 것이라고 사료되는 점액낭의 증식 및 황갈색 색소 침착의 소견이 관찰되었다. 관절경적 변연 절제 시행 후 병변 관찰하였을 때 병변은 양측 견관절 모두 삼각근의 근막을 뚫고 근층 까지 파급되어 있었다(Fig. 5D). 좌측 견관절의 회전근개 파열에 대해서는 추가적인 봉합이 가능할 수 있는 것처럼 보였지만 수술 당시 감염을 완전히 배제하지 못해 비흡수성 봉합사를 이용하여 부분 봉합술 만 시행하고,

고정나사(anchor)를 이용한 봉합은 시행하지 않았다(Fig. 4D). 우측에 대해서는 남아있는 극상건 및 극하건이 거의 없어 봉합을 시행하지 못하였다. 또 단순 방사선 검사 및 자기공명 영상에서 관찰되었던 좌측 상완골두 골낭종에 대해서도 관절경적인 골낭종 제거술 시행하였다. 수술 후 환자는 좌측 견관절에 대해서만 3주간 외전보조기 착용을 하였으며, 우측 견관절에 대해서는 술 후 2일째부터 수동적인 견관절 운동을 시작하였다. 환자는 술 후 3주째 퇴원하였으며, 퇴원시 통증은 많이 감소하였으나 관절운동 범위와 근력은 크게 호전되지 않았다.

고 찰

색소 용모 결절성 활액막염은 병인이 밝혀지지 않은 증식성 질환으로 관절 활액낭이나 건막 활액

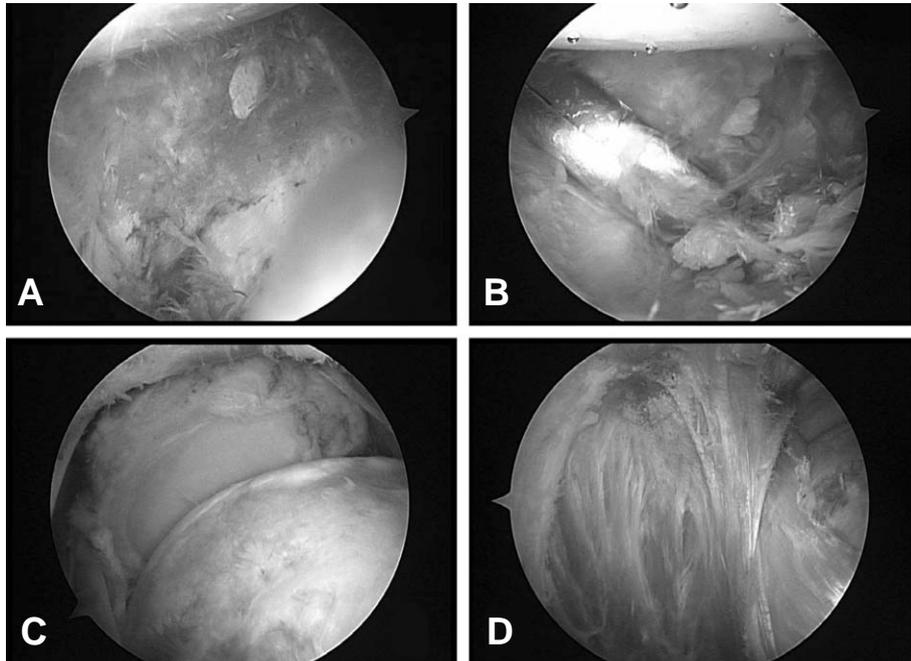


Fig. 5. (A, B) Right shoulder showing somewhat similar figures with left. (C) Arthroscopic photograph showing massive rotator cuff tear on the right shoulder. (D) Arthroscopic photograph showing deltoid muscle infiltration at the subdeltoid bursa area.

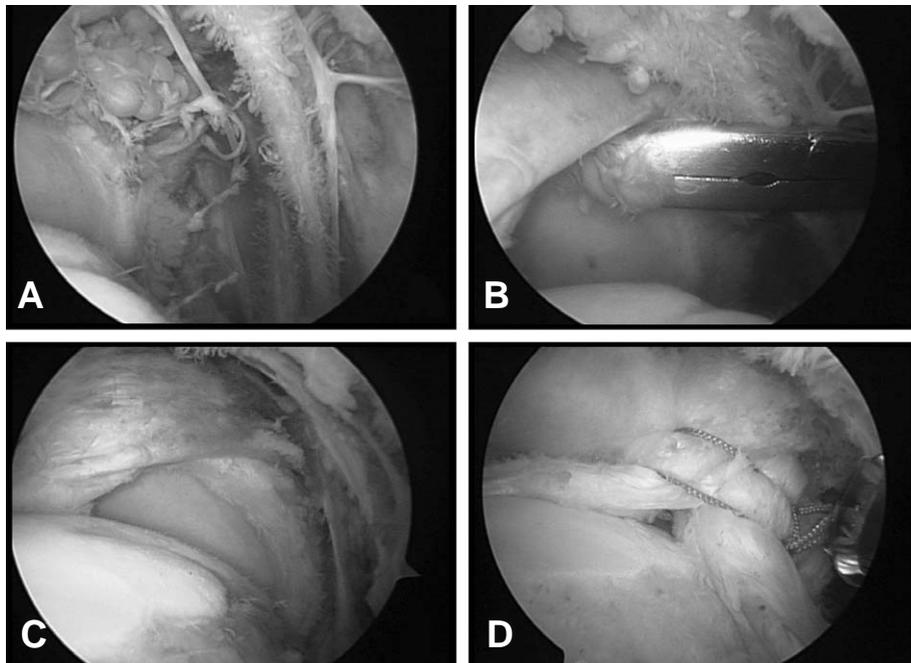


Fig. 4. (A) Arthroscopic photograph shows proliferation of yellow-brown villous synovial lesion on left shoulder. (B) So we performed arthroscopic biopsy using pituitary forceps. (C) Arthroscopic pictures show large size rotator cuff tear on the left shoulder. (D) Arthroscopic view of the subacromial space after partial rotator cuff side to side repair.

막에 결절성 구조를 형성하며, 결절의 내부에는 혈철소(hemosiderin), 콜레스테롤과 다핵성 거대세포가 침범하여 노란색 및 황갈색을 띄면서 용모의 증식을 가져오는 질환이다¹⁰⁾. 연간 100만 명당 1.8명의 발병률을 보이며, 이중 80%는 슬관절에 발생한다고 보고되고 있으며⁹⁾, 건관절의 발생은 현재까지 28예에서만 보고될 정도로 매우 드문 것으로 알려져 있다^{2,9)}. 국소형과 미만형으로 분류되며 국소형은 활액막의 일부에 결절이나 종물의 형태로 나타나며 주변의 활액막은 대체로 정상 소견을 보이는 반면에, 미만형은 관절내 활액막 전체를 침범한다. 건관절에서는 미만형이 흔하며, 미만형의 경우 회전근 개의 파열이 동반된 경우가 많다고 보고되고 있다. 이런 회전근 개 파열의 원인으로 종괴의 국소 침범보다는 충돌 증후군에 의해 이차적으로 발생한 것이라는 주장이 부각되고 있다⁸⁾.

대부분의 건관절 색소 용모 결절성 활액막염은 관절내 병변으로 국한된 경우가 많고, 경우에 따라 점액낭과 같은 관절외 구조물로 파급되는 것으로 알려져 있다⁶⁾. 하지만 본 증례의 경우에는 관절내 병변과 견봉하 공간 및 삼각근 부분까지 파급되어 있는 관절외 병변이 동반되어 있었다. 또한 본 증례처럼 양측 건관절 동시 침범에 대해서는 현재까지 보고된 바가 없다.

흔한 임상 증상은 비특이적이거나 침범된 관절의 종창, 통증 및 종괴의 촉지이며 관절 천자 시 특징적인 혈액 섞인 관절액을 볼 수 있다. 단순 방사선 검사상 압력에 의한 골미란이나 연골하 낭종, 연부조직 종괴 등을 관찰할 수 있으며, 진행된 병기에서는 이차성 골관절염 소견이나 이환된 골의 다낭성 변화 등을 관찰할 수 있다^{3,4)}. 자기 공명 영상(MRI)은 비교적 특이도가 높은 검사로 진단적 가치가 높다. 이는 연부조직 종괴의 양상을 잘 보여주며, 활액막의 증식소견을 관찰할 수 있다. 또 T1 강조 영상 및 T2 강조영상 모두에서 저신호 강도를 보이는 특징적인 혈철소의 침착을 관찰할 수 있다³⁾.

색소 용모 결절성 활액막염의 치료는 국소형의 경우 종괴 절제 및 국소 활액막 절제술이 권장되며, 미만형의 경우 활액막의 전 절제술이 표준치료로 알려져 있다. Beguin 등¹⁾은 슬관절의 색소

용모 결절성 활액막염에서 관절경적인 활액막 절제 및 종괴 절제술로 좋은 결과를 얻었다고 보고하였으며, 이들은 재술에 있어서도 관절적인 관절 절제술과 비교하여 차이가 없다고 보고한 바 있다. 건관절 색소 용모 결절성 활액막염의 치료에 대해 기존의 문헌을 고찰해 볼 때, 대다수의 저자들은 개방적 활액막 절제술 및 종괴 절제술에 의해 좋은 결과를 얻었다고 보고하였으며, Mahieu 등이 2례의 건관절 색소 용모 결절성 활액막염 환자에 대해서 관절경적인 활액막 절제술을 통해 좋은 결과를 얻었다는 보고 이외에는 관절경적 치료에 대한 보고를 찾아보기 힘들다^{2,7,9)}. 이는 대부분의 환자들이 진단의 어려움으로 인해 진행된 병기에 진단되어 골과괴 및 광범위한 관절 손상에 대한 치료가 부가적으로 필요하여 개방적 술식의 선택이 불가피 하였고, 또한 관절경 술식 및 장비의 미발달 등의 기술적인 문제로 관절경적인 접근이 어려웠던 것으로 판단된다.

최근, 관절경적인 술식은 관절내 상태의 정확한 탐색이 가능하고 개방적 술식으로 접근이 힘든 관절낭의 후하방 부분도 관찰 및 관절경적인 활액막 절제가 가능하다는 장점이 있다.

건관절의 색소 용모 결절성 활액막염은 매우 드물기 때문에 진단 및 치료에 대한 정보가 적어 논란이 많은 상태이다. 현재까지 개방적 술식에 의한 종괴 절제 및 활액막 절제술이 표준치료로 알려져 있으나 본 증례의 경우처럼 골 침범이 심하지 않아 관절 치환이 필요하지 않는 경우, 다른 질환과 감별을 요하는 경우에는 관절경적인 접근도 건관절 색소 용모 결절성 활액막염의 좋은 치료방법으로 사료된다. 본 증례에서 회전근 개의 많은 침범으로 관절 기능이 저하된 것은 추후 추가적인 치료의 대상이 되는지는 추시 관찰이 필요할 것으로 사료된다.

REFERENCES

- 1) **Beguin J, Locker B, Vielpeau C, Souquieres G:** Pigmented villonodular synovitis of the knee: results from 13 cases. *Arthroscopy*, 5: 62-64, 1989.
- 2) **Chiffolot X, Ehlinger M, Bonnomet F, Kempf JF:** Arthroscopic resection of pigmented villon-

- odular synovitis pseudotumor of the shoulder: a case report with three year follow-up. Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot, 91: 470-475, 2005.*
- 3) **Cotten A, Flipo RM, Mestdahg H, Chastanet P:** Diffuse pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Skeletal Radiol, 24: 311-313, 1995.*
 - 4) **Dorwart RH, Genant HK, Johnston WH, Morris JM:** Pigmented villonodular synovitis of the shoulder: radiologic-pathologic assessment. *AJR Am J Roentgenol, 143: 886-888, 1984.*
 - 5) **Johansson JE, Ajjoub S, Coughlin LP, Wener JA, Cruess RL:** Pigmented villonodular synovitis of joints. *Clin Orthop Relat Res, 159-166, 1982.*
 - 6) **Konrath GA, Nahigian K, Kolowich P:** Pigmented villonodular synovitis of the subacromial bursa. *J Shoulder Elbow Surg, 6: 400-404, 1997.*
 - 7) **Mahieu X, Chaouat G, Blin JL, Frank A, Hardy P:** Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis of the shoulder. *Arthroscopy, 17: 81-87, 2001.*
 - 8) **Mulier T, Victor J, Van Den Bergh J, Fabry G:** Diffuse pigmented villonodular synovitis of the shoulder. A case report & review of literature. *Acta Orthop Belg, 58: 93-96, 1992.*
 - 9) **Muller LP, Bitzer M, Degreif J, Rommens PM:** Pigmented villonodular synovitis of the shoulder: review and case report. *Knee Surg Sports Traumatol Arthrosc, 7: 249-256, 1999.*
 - 10) **Myers BW, Masi AT:** Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis: a clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review. *Medicine (Baltimore), 59: 223-238, 1980.*

초 록

색소 용모 결절성 활막염은 양성 증식성 활막의 병변으로 관절이나 건초, 점액낭 등을 침범한다. 이는 주로 한 관절에 발생하며, 다 관절 침범은 1% 미만에서 보고되고 있다. 또 슬관절 및 수부에 주로 발생하며, 견관절에서 발생하는 경우는 드물다. 색소 용모 결절성 활막염의 치료에 대해서는 아직까지 논란이 많은 상태이나 일반적으로 활액막 전 절제술이 표준치료로 알려져 있다.

저자들은 양측 견관절에 동시에 발생한 색소 용모 결절성 활막염으로 내원한 환자에 대해서 관절경적 활액막 절제술을 시행하여 수술소견과 임상 경과에 대해 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

색인 단어: 색소 용모 결절성 활막염, 견관절, 관절경