

색소 용모결절종 환자에 시행한 족관절 인공관절 치환술(1예 보고)

부산 메리놀병원 정형외과

하정민 · 최선진 · 이창범 · 하정한 · 박형택

Total Ankle Replacement in Pigmented Villonodular Synovitis of Ankle Joint (A Case Report)

Jung-Min Ha, M.D., Sun-Jin Choi, M.D., Chang-Bum Lee, M.D., Jeong-Han Ha, M.D., Hyung-Taek Park, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Maryknoll Hospital, Busan, Korea

=Abstract=

Pigmented villonodular synovitis (PVNS) is a rare proliferative disease affecting joint synovium, tendon sheaths, bursae. The usual treatment for PVNS is a surgical excision. If destructive joint lesions have occurred, complete resections must be performed followed by arthrodesis or arthroplasty. We report a case of a pigmented villonodular synovitis involving an ankle joint which was treated by total ankle replacement for recurrence after simple synovectomy.

Key Words: Ankle, Pigmented villonodular synovitis (PVNS), Total ankle replacement

색소 용모결절성 활액막염은 관절 활액막, 건초, 점액낭에서 발생하여 천천히 진행되는 활액막 증식성 질환으로 인구 백만명당 1.8명에만 유병할 정도로 드문 질환이다. 국소적이나 자루형 종물 형태로 관절에 발생하는 국소형과 이환된 관절의 활액막 전체를 침범하는 미만형으로 분류되며, 주로 20~30대에 호발하는 질환이다. 다발관절에 이환하는 경우는 드물며, 주로 이환되는 단일관절은 슬관절이며 그 외 고관절, 족관절 순으로 드물게 발생하며 치료는 활액막 제거술이며 관절의 파괴가 심하면 인공관절 치환술을 고려해야 하는 경우도 있다. 인공관

절 치환술의 결과는 슬관절, 고관절에 대해서는 보고된 예는 있으나^{1,2)} 족관절에 대해서는 보고된 경우가 드물다. 저자들은 우측 족관절의 색소 용모결절성 활액막염을 진단받고 활액막 절제술을 시행한 뒤 경과관찰하던 중 관절 파괴가 진행되어 족관절 인공관절 치환술로 치료한 증례를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례 보고

48세 남자 환자로 1년 전부터 지속되는 우측 족관절의 동통과 종창을 주소로 내원하였다. 과거력상 특이소견은 없었으며, 내원 당시 이학적 검사상 우측 족관절의 후방에 경도의 압통이, 족관절 전방과 외측으로 중도의 종창이 촉진되었으며 관절운동 범위는 제한은 없었고 혈액검사상 백혈구 $6.9 \times 10^3/\text{mm}^3$, 적혈구 침강 속도 7 mm/hr로 염증소견은 관찰되지 않았다. 단순방사선 사진 소견상 족관절 주위로 연부조직의 종창 및 내측 거골원개와 원위 경

Received March 17, 2010 Accepted May 13, 2010

• Hyung-Taek Park, M.D.

Maryknoll Hospital, Daechong-dong 4-ga, Jung-gu, Busan 600-730, Korea

Tel: +82-51-461-2376 Fax: +82-51-463-1194

E-mail: metacarpal@lycos.co.kr

골의 관절면에 방사선투과성 병변이 관찰되었으며(Fig. 1), 자기공명영상 검사상 T1 및 T2 강조 시상면 영상상 족관절 전방과 후방에 혈색소가 침착된, 저신호 강도의 종물이 관찰되었다(Fig. 2). 수술은 관절경 소견상 과증식된 갈색의 활액막과 골연골 파괴가 관찰되었으며 활액막 완전 제거를 위해 전외측 절개와 내과에서 종골까지 이르는 만곡 절개가 시행되었으며, 수술소견상 족관절 전외측에 4.3×3.5 cm의 갈색 결절성 형태의 활액막 관찰되었으며, 주위 조직과 박리하여 조직생검을 실시한 후 개방 활액막 절제술 및 세척술을 시행되었다. 조직학적 소견상 단핵 조직구 및 대식세포, 거대세포, 혈색소가 침착된 세포 등이 관찰되어 색소 용모결절성 활액막염으로 진단되었다(Fig. 3). 수술 후 18개월간 추시관찰하던 중 우측 족관절 동통과 종창이 발생하여 새로 촬영한 단

순방사선 사진상 이전 사진과 비교하였을때 이전의 거골 원개의 방사선투과성 병변이 골괴사증으로 진행하면서 관절 주위로 골극과 함께 퇴행성 변화보이며 관절강이 협소해지는 소견 관찰되었으며(Fig. 4), 술 전 관절 운동 범위는 족배 굴곡 10°에서 족저 굴곡 20°였고, AOFAS score는 60점이었으며, Hintegra® Total ankle prosthesis (Newdeal, Lyon, France)를 이용해서 족관절 인공관절 치환술을 시행하였다(Fig. 5). 족관절 인공관절 치환술 이후 1년째 족관절 주변으로 종창이 관찰되어 4주간에 걸쳐서 총 3,500~4,000 cGy의 방사선 치료를 시행하였으며, 술 후 2년 6개월간 추시관찰하고 있고 동통과 종창 등의 재발의 징후는 보이지 않았다. 관절 운동범위는 족배 굴곡 15°에서 족저 굴곡 25°, AOFAS score는 85점이었다.

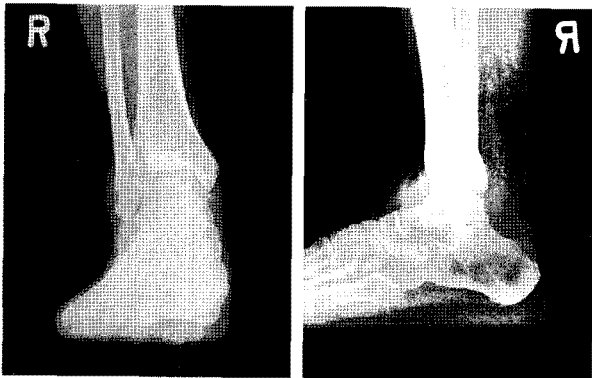


Figure 1. Preoperative plain radiographs of right ankle show diffuse soft tissue swelling, joint capsule distension and radiolucent subchondral bone lesions in the medial talar dome and articular surface of distal tibia.

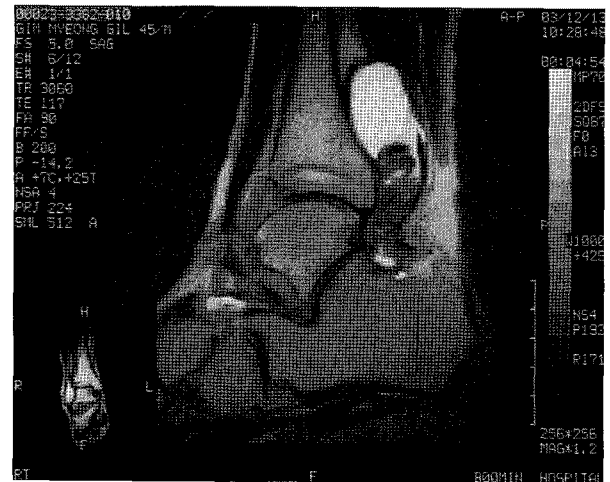


Figure 2. Preoperative MRI T2 weighted sagittal image shows low signal density mass in the talar dome.

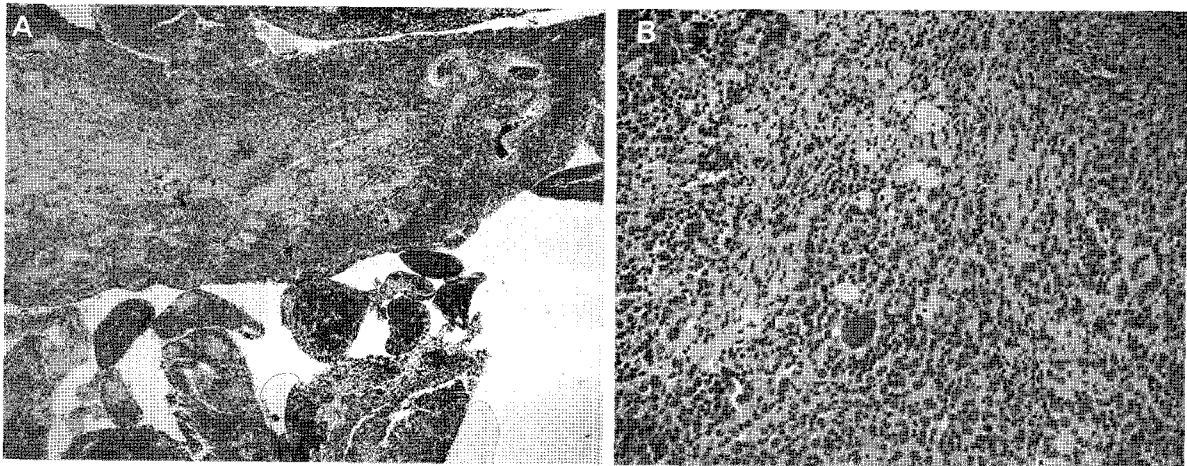


Figure 3. Microscopic findings show mononuclear histiocytes, multinucleated giant cells, hemosiderin-laden cells. (A) H&E, original magnification ×40, (B) H&E, original magnification ×200.

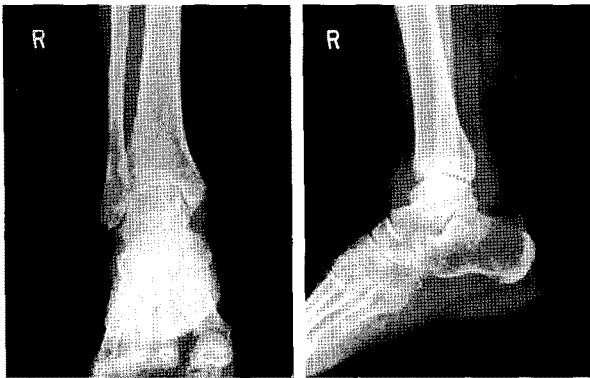


Figure 4. Plain radiographs after synovectomy 18 months ago show joint space narrowing with joint effusion, soft tissue swelling, and radiolucent subchondral bone lesions in the medial talar dome and distal tibia.

고 찰

색소 용모결절성 활액막염은 관절의 활액막, 건초, 점액낭의 용모성 또는 결절성 과증식을 특징으로 하는 활액막이 천천히 점진적으로 증식하는 특발성 질환이다. 1852년 Chassignac이 처음 이 질환에 대해 기술하였고, 1941년 Jaffe 등³⁾이 활액막, 건초에서 발생한 이 질환에 대해 처음으로 색소 용모결절성 활액막염이라고 명명하였으며, 인구 백만명당 1.8명 발생하는 매우 드문 질환이고 20~30대에 호발한다. 특히 젊은 환자에서 대관절부에 단일 병변이 관찰될 때는 다른 질환과의 감별이 중요하다. 관절천자를 시행하면 관절내 출혈로 인해 피 성분의 파괴 때문에 갈색의 관절액이 채취되기도 한다. 정확하게 밝혀지지는 않았지만 만성 염증, 신생물, 지방 대상 장애, 외상, 반복된 출혈 등이 원인인자로 추정된다. 국소형과 미만형으로 분류되며, 그중에서 미만형은 활액막 전층에 생기며, 또한 관절 조직의 파괴를 동반한다. 그에 반해 국소형도 대부분 관절 활액막에 생기지만 관절에 국소적 또는 자루형 결절 형태를 띤다. 양성인긴 하지만 공격적인 성향이 있어 현저하게 관절과 인접한 관절연골까지 파괴시키기도 한다. 수술적 절제술이 일반적인 치료법이며, 주로 이환된 관절 위치와 질환의 진행 정도에 따라 치료법에 차이가 있다. 미만형은 점차 진행하여 절제술 후에도 재발하는 경우가 있고 반면에 국소형은 국소적 절제술만으로 재발이 드문 편이고 미만형의 경우 약 50%에서 재발한다는 보고가 있다.

대형 관절에서 발생한 색소 용모결절성 활액막염은 평균 4년간 추시 결과, 뼈 침범이 있는 경우, 미만형, 종양이 불완전하게 절제된 경우가 뼈 침범이 없고, 국소형,

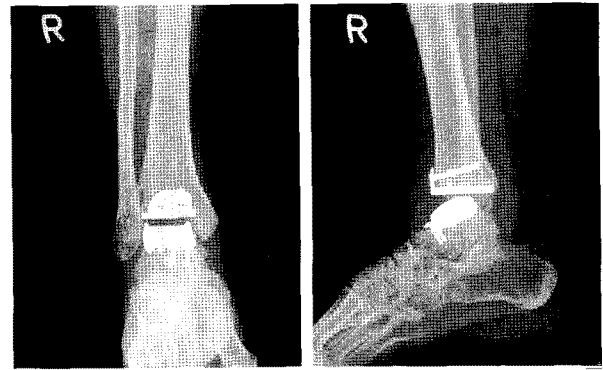


Figure 5. Postoperative plain radiographs shows total ankle replacement state and no evidence of further destructive changes or cysts.

종양이 완전히 절제된 경우에 비해 재발률이 높았다고 하였으며, 특히 슬관절에 발생한 8예의 보고에서는 활액막 전절제술과 부분절제술을 각각 시행하였으나 3예에서 3년 이내에 재발을 하여 다시 전절제술을 시행하였고, 특히 1예에서는 활액막 전절제술과 슬관절 인공관절 전치환술을 같이 시행하여 추시관찰 기간동안 재발하지 않았다는 보고도 있다⁴⁾.

족부족관절에서는 색소 용모결절성 활액막염은 10% 미만으로 발생빈도도 낮은 편이고 임상양상과 치료법이 확립되지 않았다. 족부족관절에 발생한 경우 기술적으로 전 절제술이 어려우며, 해부학적 특성상 관절내 공간이 협소하며, 격자 구조이고 관절내시경 삽입구 위치가 제한적이어서 관절 내시경하 절제술이 힘들며, 관절 절개술로 통한 절제술 시에도 내외측 동시 접근법이 종종 요구된다⁵⁾. 일반적인 치료법은 활액막 절제술, 방사선 치료, 절단술 등이 있다. 일차 병변일 경우 국소형은 국소 절제술이 미만형은 전절제술이 추천된다. 절제술은 관절 내시경과 관절 절개술로 시행할 수 있으며, 관절 내시경하 절제술은 환자에게 유용하나 재발률이 높다는 단점이 있으며, 관절 절개술을 통한 절제술은 술후 통증과 관절 강직도 생길 수 있으며 술후 회복시간이 더 길지만 재발률은 관절 내시경하 절제술에 비해 낮다^{6,7)}. Flandry 등⁸⁾은 5년 추시 결과 슬관절 절개술을 통한 활액막 절제술 후 재발률이 10% 미만이었다고 보고하고 있다. 그러나 절제술 단독으로 여전히 재발률이 높기 때문에 술 전 병변부의 크기를 감소시키고 술 후 재발률을 낮추기 위해 방사선 치료⁹⁾와 yttrium 90의 관절내 주입술¹⁰⁾이 도움이 된다는 보고도 있으며, 이를 통해 특히, 젊은 환자에게 있어서 관절 파괴로 인한 관절 유합술이나 절단술의 시기를 연기하는 효과가 있다고 하였다. 본 연구에서는 일

차적으로 전절제술을 시행하였으며, 술 후 관절 운동 범위도 충분하였고 관절강 형태도 잘 유지되었으나 추시 관찰 중 1년 6개월째 관절 운동 범위의 감소와 함께 동통, 종창이 다시 발생하였고, 촬영된 단순방사선 사진에서 관절의 파괴가 관찰되었다. 물론 전절제술 후 재발한 경우 방사선 치료가 추천되나 본 연구에선 관절의 파괴가 현저하여 족관절 인공관절 치환술이 시행되었다. 슬관절 및 고관절에 발생한 색소 용모결절성 활액막염의 치료시 인공관절 치환술을 시행한 예는 보고되고 있었으나^{1,2)} 족관절에서는 국내에서 보고된 바가 없으며, 본 연구처럼 중년 남성 환자에서 관절 절단술 내지 유합술을 시행하기에 그로 인한 합병증 및 불편감이 더 하기에 인공관절 치환술이 시행되었으며, 2년 6개월 동안 추시 관찰 중에도 재발이나 임상적으로 다른 합병증이 아직 보이지 않아 족관절에 발생하는 색소 용모결절성 활액막염 치료시 활액막 절제술 후 관절 파괴가 진행되며 동통, 종창 동반되면서 병변이 재발하였을 때는 인공관절 전치환술이 유용하다고 생각되며, 이에 대해서는 장기적인 추시 관찰이 필요할 것으로 사료된다.

REFERENCES

1. **Hoberg M, Amstutz HC.** Metal-on-metal hip resurfacing in patients with pigmented villonodular synovitis: a report of two cases. *Orthopedics.* 2010;33:50.
2. **Pinaroli A, Ait SST, Servien E, Neyret P.** Surgical management of pigmented villonodular synovitis of the knee: Retrospective analysis of 28 cases. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot.* 2006;92:437-47.
3. **Jaffe H, Lichtenstein L, Sutro C.** Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis. A discussion of synovial and bursal equivalents of tenosynovial lesion commonly denoted as xanthoma, xanthogranuloma, giant cell tumor, or myeloplaxoma of tendon sheath, with some considerations of this tendon sheath lesion itself. *Arch Pathol.* 1941;31:731-65.
4. **Kim RS, Kim CS, Park HW, Park JH.** Clinical Featured of Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis in the Knee Joint. *J Korean Orthop Assoc.* 2002;37:215-9.
5. **Bisbinas I, Silva UD, Grimer RJ.** Pigmented villonodular synovitis of the foot and ankle: a 12-year experience from a tertiary orthopedic Oncology Unit. *J Foot Ankle Surg.* 2004;43:407-11.
6. **Brien EW, Sacoman DM, Mirra JM.** Pigmented villonodular synovitis of the foot and ankle. *Foot Ankle Int.* 2004;25:908-13.
7. **Rochwerger A, Groulier P, Curvale G, Launay F.** Pigmented villonodular synovitis of the foot and ankle: a report of eight cases. *Foot Ankle Int.* 1999;20:587-90.
8. **Flandry FC, Hughston JC, Jacobson KE, et al.** Surgical treatment of diffuse pigmented villonodular synovitis of the knee. *Clin Orthop Relat Res.* 1994;300:183-92.
9. **Ward WG Sr, Boles CA, Ball JD, Cline MT.** Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis: Preliminary Results with Intralesional Resection and P32 Synoviorthesis. *Clin Orthop Relat Res.* 2007;454:186-91.
10. **Shabat S, Kollender Y, Merimsky O, et al.** The use of surgery and yttrium 90 in the management of extensive and diffuse pigmented villonodular synovitis of large joints. *Rheumatology.* 2002;41:1113-8.