

## CASE REPORT

대한족부족관절학회지 제17권 제1호 2013  
J Korean Foot Ankle Soc. Vol. 17. No. 1. pp.64-67, 2013

# 전족부에 발생한 색소 용모 결절성 활액막염 (1례 보고)

대전 선병원 정형외과학교실, 이경태 정형외과병원\*

김준범 · 송인수 · 전재균 · 김태인 · 선동혁 · 이경태\*

## Pigmented Villonodular Synovitis in Forefoot (A Case Report)

Jun Beom Kim, M.D., In Soo Song, M.D., Je Gyun Chon, M.D., Tae In Kim, M.D.,  
Dong Hyuk Sun, M.D., Kyung Tai Lee, M.D.\*

Department of Orthopedic Surgery, Foot and Ankle Clinic, Sun General Hospital, Daejeon, Korea,  
Foot and Ankle Clinics, KT Lee's orthopedic Hospital, Seoul, Korea\*

### =Abstract=

Pigmented villonodular synovitis (PVNS) is a slowly, progressive, proliferative disorder of synovial tissue characterized by villous or nodular changes of synovial-lined joints, bursae, and tendon sheaths and most frequently affects the large joints, with the knee and hip. A few studies have been reported that occurred PVNS in small joint, but mainly in hands. It is a very rare condition that occurs in the small joints of the forefoot. We have experienced the case, which developed in small joint of the forefoot, and performed total synovectomy. After the operation, there was no recurrence. We report a case of PVNS in forefoot with a review of the literature.

**Key Words:** Pigmented Villonodular synovitis, Total synovectomy, Forefoot

색소 용모 결절성 활액막염 (PVNS)은 주로 슬관절, 고관절과 같은 큰 관절에 호발하는 중앙 유사질환으로 건초나 점액낭부위에 서서히 그리고 점진적으로 증식하는 활액막을 특징으로 한다.<sup>1)</sup>

조직학적으로 활막 세포와 조직구의 증식, 혈철소를

함유한 거품세포를 관찰할 수 있다.<sup>2)</sup>

중중 작은 관절에도 침범하는 경우가 보고된 바 있으나, 주로 수부에 발생하는 경우가 대부분이며,<sup>3)</sup> 족부의 작은 관절에서 발생하는 경우는 매우 드물다.<sup>1,4)</sup> 초음파 검사는 근골격계 질환을 진단하는데 이미 널리 사용되고 있으며, 특히 종괴를 진단하는데 선별 검사로 1차 검사방법이다. 저자들은 전족부에 발생한 종괴를 초음파를 이용하여 결절성으로 진단하였고, 수술 중 생검에서 색소 용모성 결절성 활액막염으로 확진한 증례를 경험하였다. 족지 관절에서 발생한 예가 아직 국내에서 보고된 바가 없고, 발생 빈도가 매우 낮은 부위에서 관찰된

Received: October 15, 2012 Revised: November 6, 2012  
Accepted: November 13, 2012

• **Corresponding Author: In Soo Song, M.D.**

Department of Orthopedic surgery, Sun General Hospital, Mok-dong, Jung-gu, 10-7, Daejeon, 301-725, Korea  
Tel: +82-42-220-8460 Fax: +82-42-220-2554  
E-mail: kjb9290@hanmail.net

본 증례를 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증례

58세 남자 환자로 내원 10개월 전부터 지속되는 우측 전족부 제 3 지간부의 족배부 종괴를 주소로 내원하였다. 과거력상 당뇨병 이외에 특이 소견은 관찰되지 않았고, 평소 등산을 즐겨한다고 하였다. 내원 당시 시행한 신체 검사상 종괴는 딱딱하였고, 유동성은 거의 없었다. 종괴 부위의 심한 압통은 없었고, 신발을 신거나 관절 운동시에만 심한 불편감을 호소하였다. 종괴 크기는 점진적으로 커지는 양상이었다고 하고, 최근에 크기는 더 이상 커지지 않았지만 불편감이 심해졌다고 하였다. 혈액 검사상 특이 소견은 관찰되지 않았고, 단순 방사선 촬영상 제 3 중족골의 두경부 부위에 경화성(sclerotic) 병변이 관찰되었다(Fig. 1). 종괴 양상을



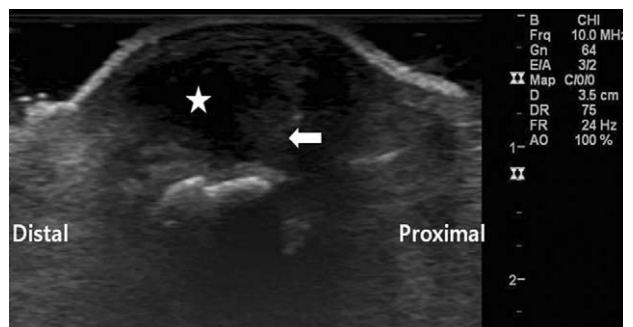
**Figure 1.** Anteroposterior radiograph of the right foot shows a bony indentation of the junction between the 3<sup>rd</sup> metatarsal head and neck.

선별하기 위해 초음파 검사를 시행하였다. 초음파 검사상 저반향(hypoechoic)과 고반향(hyperechoic) 음영이 혼합된 종괴가 관찰되었고, 표피 낭종(epidermal cyst), 결절종(ganglion cyst) 등이 의심되었다(Fig. 2). 흔히 관찰되는 종괴 양상으로 사료되었으며, 이후 추가적인 검사는 시행하지 않았고, 절제술 및 생검술을 시행하기로 하였다. 수술장 소견상 갈색 침착 있는 붉은색의 종괴와 노란색을 띠는 고형의 종괴가 관찰되었고(Fig. 3), 노란색의 종괴는 좀 더 원위부 심부쪽을 침범하여 중족지관절을 포함하고 있었다. 저자들은 국소 절제술 및 생검술을 시행하였다.

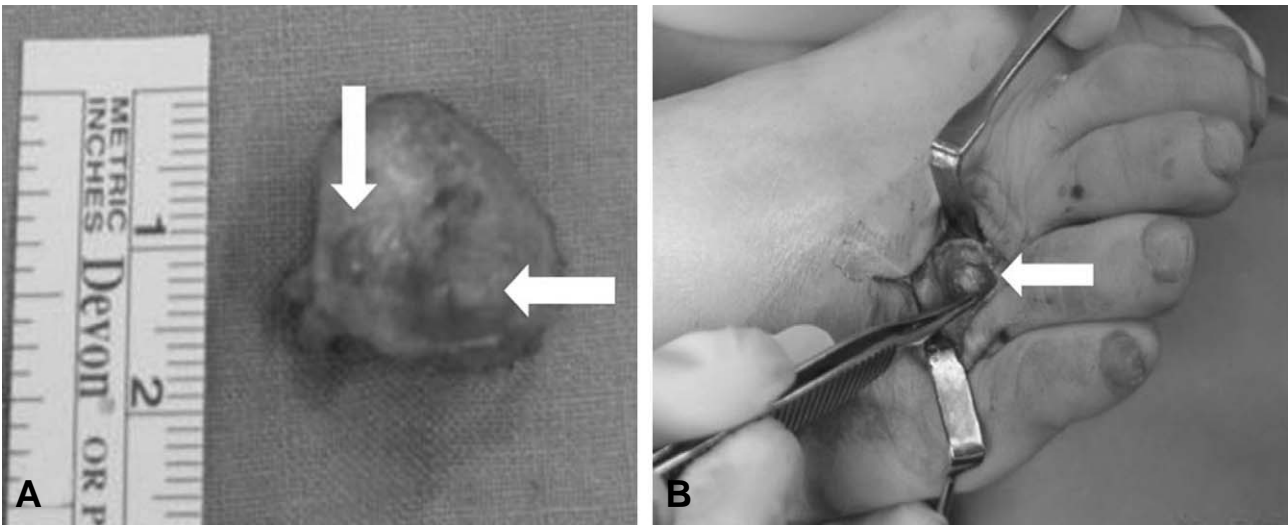
생검에 의한 병리학적 소견상 다핵구 거대 세포(multinucleated giant cell), 혈철소가 함유된 거품세포(hemosiderin-laden foam cell)가 다수 관찰되었다(Fig. 4). 색소 용모 결절성 활액막염(pigmented villonodular synovitis, PVNS)의 미만성 유형(diffused form)으로 최종 진단하였고, 활액막 전 절제술을 추가적으로 시행하였다. 방사선학 치료 등의 추가적인 치료는 시행하지 않았고, 수술 후 2년째 종괴의 재발이나 증상 발현은 관찰되지 않았다.

## 고찰

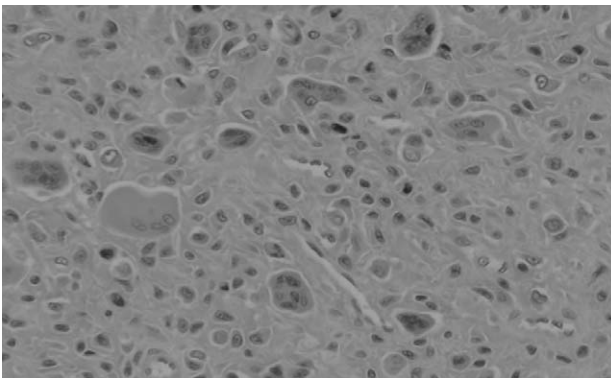
색소 용모 결절성 활액막염은 점진적으로 발생하고, 비특이적인 발병 및 방사선학적 소견상 뚜렷하지 못한 소견을 가지고 있어 진단하기가 쉽지 않다고 하며, 주로 30대와 40대 사이에서 많이 관찰된다고 한다.<sup>5-7)</sup> 그리고, 주로 슬관절이나 고관절과 같은 큰 관절에서 발생하고 작은 관절에서는 수부에서 주로 발생한다고 알려져 있고, 족부 영역에서는 매우 드물게 발생한다고



**Figure 2.** Ultrasonography shows a mixed lesion of the mass, hypoechoic (star) and hyperechoic (arrow) lesion.



**Figure 3.** Intraoperative findings. (A) There is a mass with a brownish appearance (arrow), superficial. (B) There is another mass in more deeper lesion, with yellowish appearance (arrow).



**Figure 4.** Microscopic finding. The picture shows the giant cells, hemosiderin deposits and foam cells (H&E stain, ×400).

보고 되고 있다.<sup>1,3,4)</sup> 이 질환의 발생원인에 대해서는 아직까지 명확하지 않으며, 만성 염증성 병변, 반복적인 외상, 면역, 지방 대사의 이상 등이 유발인자가 될 수 있다고 알려져 있다.<sup>2,3)</sup> 본 증례의 경우, 과거력상 당뇨에 의한 대사의 이상과 등산으로 인한 반복적인 압력이 족부에 가해짐으로써 이들이 복합적으로 작용하여 발생했을 것으로 추측된다. 단순 방사선 사진상에서 관찰할 수 있는 골 함입(bony indentation), 골막 침윤(periosteal infiltration), 피질골 천공(cortical perforation) 등과 같은 골 병변은 약 15% 정도로 보고되고 있고, 병변이 진행된 경우에는 연골하 낭(subchondral cyst)나 경화성 변연(sclerotic rim)를

가지고 있는 관절 주위 골 미란(periarticular bone erosion)을 관찰할 수 있다고 하였다.<sup>8)</sup> 또한, 다른 퇴행성 관절내 병변과 감별되는 점은 골극 형성이 없다는 것이다.<sup>9)</sup> 하지만, 골 병변에 대한 기전은 아직까지 명확하게 밝혀지지 않았고, 골과피 성질을 가진 다핵구 세포들에 의한 것으로 추측하고 있다.<sup>10)</sup> 자기 공명 영상(MRI)를 통해 혈철소(hemosiderin) 침착, 지질 및 염증 조직을 관찰함으로써 PVNS 진단에 매우 유용하고, 특히 T1-과 T2-영상에서 저음영(low signal intensity)으로 관찰되는 병변은 진단적 가치가 있는 소견으로 혈철소가 충분히 함유된 조직이 이와 같이 관찰된다고 하였다.<sup>11,12)</sup>

최근에는 근골격계 병변을 관찰하는데 비침습적이고, 사용하기 용이하며 비용 효율적인 면에서 초음파가 널리 사용되고 있으며, 진단적 가치가 인정되고 있다. 특히, 종괴에 대해서는 선별 검사로 널리 이용되어져 왔다. 본 증례에서는 단순 방사선 사진상에서 제 3중족골의 원위부의 골 함입(bony indentation)을 관찰할 수 있었고, 초음파 검사상에서는 결절종 또는 표피 낭종 등이 의심되었다. 정확한 병변 확인을 위해서 자기 공명 영상(MRI) 촬영이 추가적으로 필요할 수 있으나, 본 증례에서는 시행하지 않았다.

족부 영역에서 발생한 골 함입(bone indentation) 소견과 초음파 소견만으로는 PVNS나 다른 질환을 확진할 수는 없었고, 종괴의 확진을 위해서 저자들은 수술

적 절제술 및 생검술을 동시에 시행하기로 하였다.

PVNS는 주로 노란색, 황갈색 또는 갈색의 병변을 보이며 색소 침착은 지방과 혈철소에 의한 것으로 알려졌고, 조직학적으로는 림프구, 지질, 혈철소를 함유한 거품 세포(hemosiderin-laden foam cells), 다핵 거대 세포(multinucleated giant cells)를 관찰할 수 있다.<sup>7,10</sup> 본 증례에서도 수술장에서 갈색의 색소 침착 및 노란색을 띠는 종괴를 관찰할 수 있었고(Fig. 3), 수술 소견상 종괴는 건막 및 골을 침범하였다. 또한, 조직학적 검사상 혈철소를 함유한 거품 세포 및 다핵 거대 세포를 관찰할 수 있었고, 이는 PVNS가 다른 관절병증들과 감별되는 점이기도 하다.<sup>7</sup> 저자들은 최종적으로 미만성 색소 용모 결절성 활액막염으로 진단하였다. 치료 방법으로 전 활액막 절제술(complete synovectomy), 방사선 활액막 절제술(radiation synovectomy), 방사선 치료, 방사선 치료를 동반한 국소 절제술, 절단등 다양하게 알려져 있고, 국소성 병변에 대해서는 국소 절제술이, 미만성 병변에 대해서는 전 활액막 절제술이 권유되고 있으며, 재발성 병변에 대해서는 방사선 치료와의 병합치료를 권유하고 있다.<sup>13</sup> 본 증례는 재발성 병변이 아닌 일차성의 미만성 색소 용모 결절성 활액막염으로 전 활액막 절제술 및 종괴의 국소 절제술을 시행하였고, 방사선 치료 등의 추가적인 치료는 시행하지 않았다.

수술 후 2년째 외래 추시 관찰상 병변의 재발이나 증상의 발현은 관찰되지 않았다. 전족부 영역에서 흔하게 발생하지 않는 색소 용모 결절성 활액막염에 대해서 좀 더 많은 증례 수집이 필요하리라 생각되며, 방사선 치료와 같은 병합 치료 없이도 병변을 충분히 절제한다면 재발 없이 좋은 결과를 보일 수 있다고 사료된다.

## REFERENCES

1. **Brien EW, Sacoman DM, Mirra JM.** *Pigmented villonodular synovitis of the foot and ankle.* *Foot Ankle Int.* 2004;25:908-13.
2. **Murphey MD, Rhee JH, Lewis RB, et al.** *Pigmented villonodular synovitis: radiologic-pathologic correlation.* *Radiographics.* 2008;28:1493-518.
3. **Glowacki KA, Weiss AP.** *Giant cell tumors of tendon sheath.* *Hand Clin.* 1995;11:245-53.
4. **Rochwerger A, Groulier P, Curvale G, Launay F.** *Pigmented villonodular synovitis on the foot and ankle: a report of eight cases.* *Foot Ankle Int.* 1999;20:587-90.
5. **Saxena A, Hugo Perez H.** *Pigmented villonodular synovitis about the ankle: a review of the literature and presentation in 10 athletic patients.* *Foot Ankle Int.* 2004;25:819-26.
6. **Goldman AB, DiCario EF.** *Pigmented Villonodular Synovitis: diagnosis and differential diagnosis.* *Radiol. Clin. N. Am.* 1998;26:1327-47.
7. **Granowitz SP, Antonio J, Mankin HL.** *The pathogenesis and long-term end results of pigmented villonodular synovitis.* *Clin. Orthop.* 1975;114:335-51.
8. **Llauger J, Palmer J, Monill JM.** *MR imaging of benign soft tissue masses of the foot and ankle.* *Radiographics.* 1998;18:1481-98.
9. **Smith JH, Pugh DG.** *Roentgenographic aspects of articular pigmented villonodular synovitis.* *Am. J. Radiol.* 1962;87:1146-58.
10. **Darling JM, Goldring SR, Harada Y, et al.** *Multinucleated cell in pigmented villonodular synovitis and giant cell tumor of tendon sheath express feature of osteoclasts.* *Am. J. Path.* 1987;150:1383-93.
11. **Jelink JS, Kransdorf MJ, Utz JA, et al.** *Image of pigmented villonodular synovitis with emphasis on MR Imaging.* *Am. J. Radiol.* 1989;152:332-42.
12. **Mandelbaum BR, Grant TT, Hartzman S, Mirra J, Finerman G.** *The Use of MRI to assist in diagnosis of pigmented villonodular synovitis of the knee joint.* *Clin. Orthop.* 1988;231:135-9.
13. **Flandry F, Hughston JC.** *Pigmented villonodular synovitis.* *J. Bone Joint Surg Am.* 1978;69:942-9.