

## Undetected Incomplete Stress Fracture in the Proximal Femur of a Patient with Paget's Disease - A Case Report -

Hong Kyun Kim, MD, Jung Han Yoo, MD, Yong Wook Park, MD, Jin Soo Park, MD, Kyu Cheol Noh, MD, Kook Jin Chung, MD, Min Young Jo, MD, Ji Hyo Hwang, MD

Department of Orthopedic Surgery, Kangnam Sacred Heart Hospital,  
College of Medicine, Hallym University, Seoul, Korea

Paget disease is a well-documented skeletal disease and it has an increased rate of tissue breakdown due to the excessive turnover of osteoblasts and osteoclasts. Stress fracture is one of the most common complications in the late phase of Paget disease, but the clinical presentation of incomplete pathologic fracture is rare and this is an important clue to plan the treatment. We experienced a case of Paget's disease in a 74 year old woman with a periprosthetic fracture from the undetected, incomplete stress fracture in the proximal femur.

**Key Words:** Paget disease, Incomplete stress fracture, Proximal femur

### 서 론

Paget 병은 1877년 영국의 외과의이자 병리학자인 Jame Paget에 의해 처음 기술되었으며 당시 변형성 골염(osteitis deformans)이라고 명명되었다. 이는 중년 이후 발생하는 만성 골 질환으로 대개 Anglo-Saxon족에 호발하나 동양에서는 매우 드물다<sup>1)</sup>. 저자들은 고관절에 발생한 Paget 병을 인공 관절 반 치환술을 시행하였으며 술 후 6개월째 전자 하부에 인공 치환물 주위 골절이 발생하여 방사선학적 영상을 후향적 분석을 하였더니 대퇴 근위부에 수술 전부터 있었던 불완전 병적 횡상 골절이 있었으며 이를 발견하지 못한 채 수술을 하여 인공 치환물 주위 골절을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

### 증례 보고

74세 여자 환자가 10여 년 전부터 좌측 고관절 주위 동통이 있었으나 특별한 치료는 하지 않고 지내던 중 3개월 전부터 증상이 악화되고 보행이 어려워지자 지역 병원에서 수술 권유받고 외래 통해 내원하였다. 과거력에서 신경과적으로 Parkinson병에 대한 약물치료외에 타 질환 및 약물 치료의 병력은 없었다. 이학적 소견에서 고관절 부위 동통이 있었으나 운동 범위 제한 및 특이 소견은 없었다. 단순 방사선 소견에서 대퇴 경부에서 전자간 하부까지 내외측 피질 골의 비후가 관찰되고, 대퇴골의 음영은 전반적으로 증가되어 있었으며 양측 모두 경도의 내반 고 변형이 관찰되었다(Fig. 1). 99 m-Tc을 이용한 핵 의학 골 주사 방사선 촬영 소견에서 장골과 비구부를 포함하여 고관절 근위부 및 제 11흉추까지 강도의 흡수 증가 소견을 보였다(Fig. 2). 이는 특별한 외상의 병력이 없는 한 염증성 골 질환을 의심할 수 있는 소견이었다. 외부에서 시행한 자기 공명 영상(MRI) 소견에서는 T1강조 영상에서 대퇴 골두 외측 절반에 걸쳐 불규칙한 저 신호 강도를, T2 강조 영상에서는 고 신호 강도를 나타냈다(Fig. 3). 정확한 판독은 없었으며 해상도는 본원 MRI에 비해 상당히 저하되었다. 입원 당시 수술 전 혈액학적 검사 소견에서 혈색소 12.9 g/dL(11~14), 적혈구 침강 속도 3 mm/hr(0~30), CRP

Submitted: March 18, 2010

1st revision: August 9, 2010

2nd revision: November 3, 2010

3rd revision: December 2, 2010

Final acceptance: December 6, 2010

• Address reprint request to **Ji Hyo Hwang, MD**

Department of Orthopedic Surgery, Kangnam Sacred Heart Hospital,  
College of Medicine, Hallym University, 948-1 Daerim 1-dong  
Yeongdeungpo-gu, Seoul 150-950, Korea

TEL: +82-2-829-5165 FAX: +82-2-834-1728

E-mail: hwangjihyo7309@gmail.com

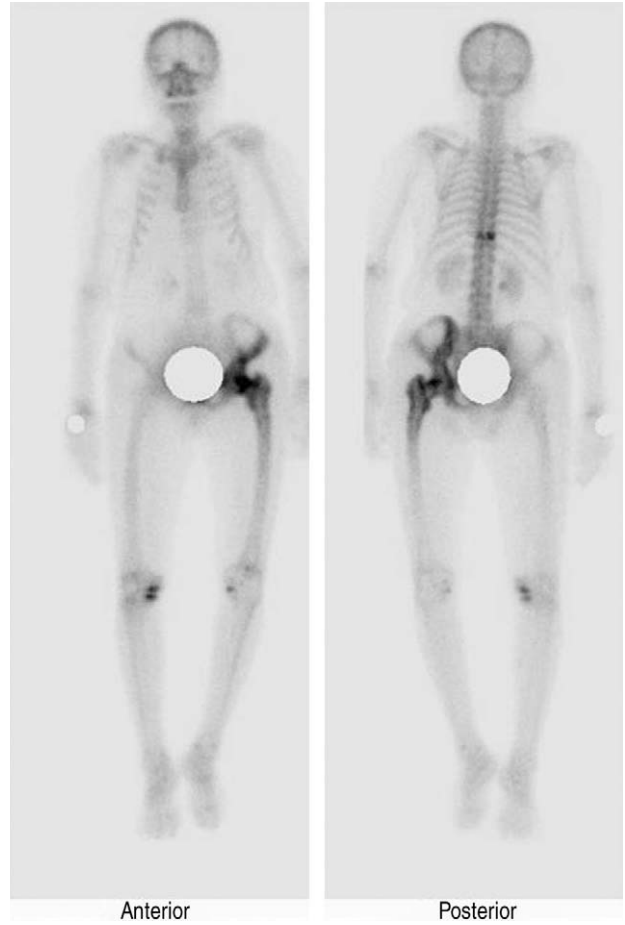
Copyright © 2011 by Korea Hip Society

0.6 mg/L(0~3), 알칼리성 인산염 효소 226 IU/L(89~237) 및 phosphorus 3.9 mg/dL(2.6~4.6)로 정상 범위였으나, 백혈구 수는 10430/mm<sup>3</sup>(4000~10000)로 경미하게 증가되어 있었으며, Calcium 8.3 mg/dL(8.4~10.2), 골밀도 검사(Q-CT)의 T-score는 -5.2로 감소되어 있었다. 골성 혹은 대사성 골 질환을 의심하여 콜라겐 대사 산물인 hydroxyproline, total (urine, 24hr)을 측정하였으며 48.8 U<sub>g</sub>/mg (참고치: 19~36)로 증가되어 있었다. 수술은 수술자의 기호에 따라 인공관절반치환술을 계획하였으며

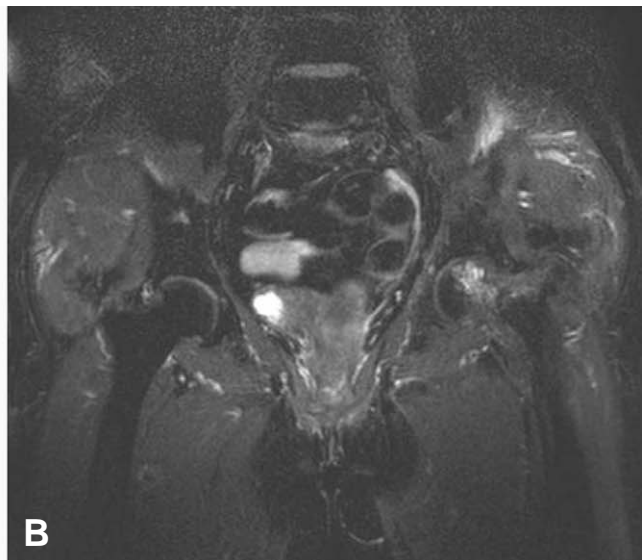
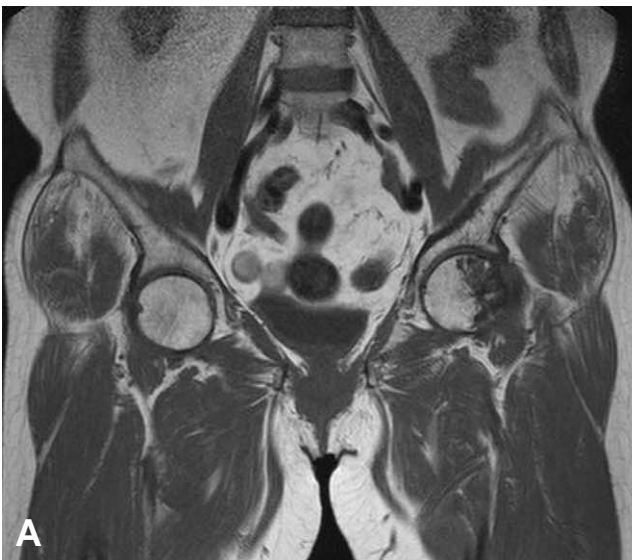
여느 때와 같이 측와위 위치에서 후 외측 접근법을 이용하



**Fig. 1.** Preoperative plain x-ray shows both femoral coxa vara and radioopaque lesions in the femoral head and the proximal femur.



**Fig. 2.** Bone scan shows hot uptake in the femoral head and proximal femur, some parts of the ilium and T11 which suggests inflammatory bone lesion.

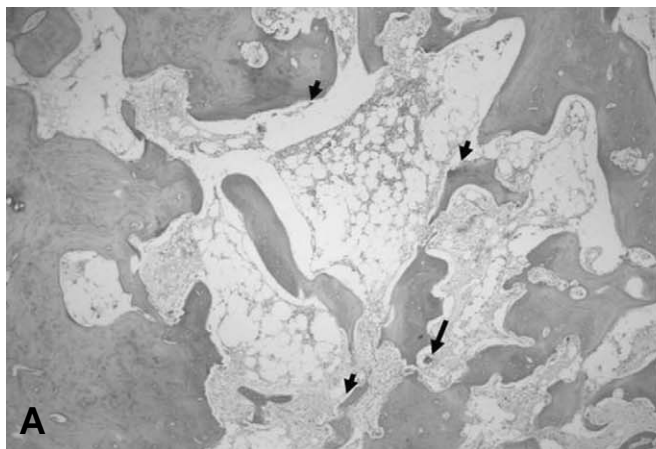


**Fig. 3.** (A) Preoperative local MRI shows low signal intensity and (B) high signal intensity in the lateral aspect of the femoral head and relatively well preserved articular cartilage.

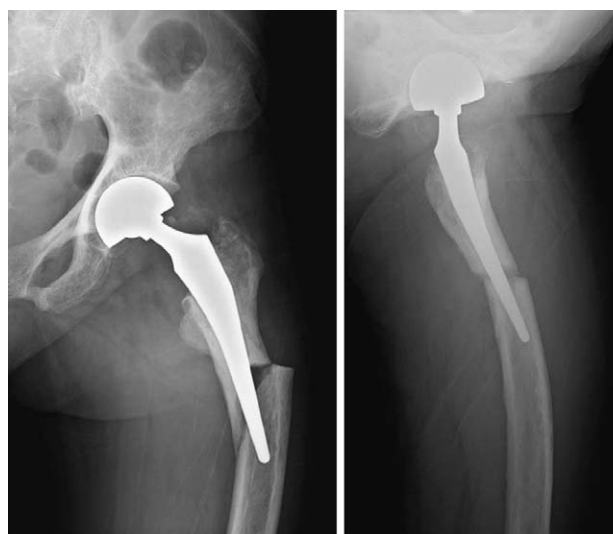
였다. 관절낭을 절개하였을 때 약간 증가된 관절액은 관찰되었으나 감염을 의심할 만한 삼출액 소견은 보이지 않았다. 골두를 노출하자 관절면은 비교적 잘 보존되어 있음을 알 수 있었다. 대퇴 골두를 절단하고 대퇴 근위부를 준비하는데 골질이 매우 단단함을 느낄 수가 있었다. 인공 삽입물은 무시멘트형 Accolade TMZF 스템(Howmedica Osteonics-Stryker, Cork, Ireland)을 사용하였다. 절단한 대퇴 골두는 병리학적 검사를 의뢰했으며 골두 내에 불규칙한 출혈성 경계를 보이며(Fig. 4) 조직학적으로 Paget병에 합당한 소견이 관찰되었다(Fig. 5). 수술 후 2일째 배뇨관 및 배액관을 제거 하고 5일째부터 물리 치료실에서 tilt table을 이용한 보행 연습을 시작하였다. 수술 후 2주째 rolling walker 보행이 가능하였으며 수술 후 20일째 퇴원하여 이후, 외래 경과 관찰하였다. 외래는 수술 후 2개월, 4 개월, 5개월째 관찰 하였으며 Paget 병에 대



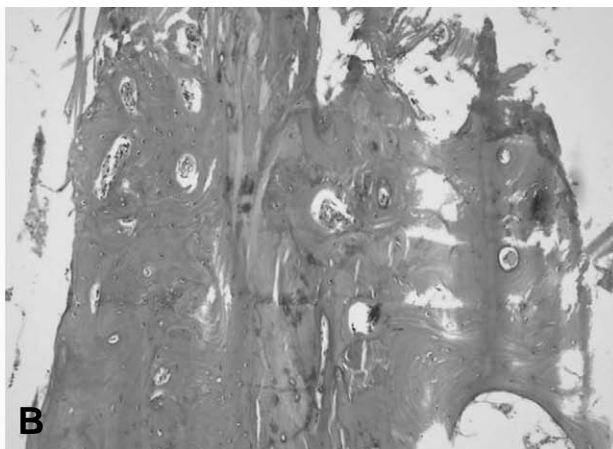
**Fig. 4.** On the gross examination, there is loss of articular cartilage with exposure of eburnated bone. The subchondral bone is sclerotic with irregular thickening of the trabecular and changes of the cortex.



한 약물 치료로는 수술 후 2개월 부터 alandronate 성분인 Fosamax plus D를 주 일회 복용하게 하였다. 약 성분과 주기 복용 시작 시기는 술자의 기호에 따랐다. 술 후 6개월 3주째 넘어지면서 발생한 수술 부위 통증으로 응급실 통해 재입원하였다. 응급실 내원 당시 골반 전 후면 사진에서는 전자 하부 외측에 횡 골절 양상의 인공 삽입물 주위 골절이 관찰 되었다(Fig. 6). 외상의 힘이 크지 않은 점과 병적 골절에서 주로 관찰되는 횡상 골절이 보여 단순한 인공 삽입물 주위 골절이 아니라 생각하고 후향적으로 단순 방사선 사진과 외부 자기 공명 영상을 분석하니 수술 전부터 병적 골절이 있었음을 알 수 있었다(Fig. 7). 재수술은 측와위에서 기존 절개를 이용하여 스템을 제거한 이후에 재건용 스템[revision stem (Restoration DPM®, Howmedica Osteonics-Stryker, Cork, Ireland)]을 사용



**Fig. 6.** Transverse fracture line is seen on the convex area of the proximal femur on 6 months after operation.



**Fig. 5.** (A) On the microscopic examination, there are irregularly thickened and disorganized trabeculae lined by increased numbers of osteoblasts (short arrow) and multinucleated osteoclasts (long arrow), (H&E,  $\times 100$ ). (B) Woven bone with irregular, wavy, and curliform cement lines (arrow) is noted (H&E,  $\times 400$ ).

하였다. 대퇴 간부의 전 측방부에 동종 구조골을 이용하고 강선(cable)을 이용하여 골절부를 보강하였다(Fig. 8). 수술 후 약 12주간 체중 부하를 제한한 보행을 교육시켰다. 재수술 15개월까지 외래 경과 관찰 중으로 현재 walker 보행 중이다.

## 고 찰

Paget 병은 서양에서는 비교적 흔한 대사성 골 질환으로 역학만을 보고한 논문에 의하면 미국은 0.9~3.9%, 영국에서는 5%, 뉴질랜드에서는 2.6%에서 관찰된다고 보고

하였다<sup>2,3)</sup>. 국내에서는 2002년 정 등이 한국인에서 발생한 Paget 병의 골격 증상을 11명의 환자를 분석하여 보고하였으며 그 이전의 증례 보고 7예를 합치면 총 18예가 보고될 정도로 많이 드문 질환으로 알려져 있다<sup>4)</sup>. 원인에 대해서는 아직 확실한 근거가 없어 유전적 요인 외에도 자가 면역 질환, 결체 조직 합성의 선천성 질환 등으로 원인을 설명하며 최근에는 분자 생물학적 기법을 이용하여 slow virus, 특히 paramyxoma virus 감염설을 뒷받침하는 증거들이 보고되고 있다<sup>4)</sup>. 일반적으로 이환되는 부위는 주로 축성 골격인 척추, 두개골, 골반골 등에 흔히 발생하며 대퇴골, 경골, 거골, 상완골, 견갑골, 늑골 등의 보고가 있



**Fig. 7.** (A) It shows incomplete pathologic fracture in the lateral cortex on the both plain x-ray and (B) MRI.



**Fig. 8.** Revisional arthroplasty was done with allogenic strut bones and cables.

다. 이 중 골반골이 가장 흔히 이환되는 부분이다. 본 증례에서는 골반골 및 근위 대퇴 골에 동시에 발생한 다발성 형태(polyostotic)이며 약 20%에서는 단발성(monostotic)으로 발생한다고 한다<sup>5)</sup>. 대부분의 환자에서는 증상이 없으며 동통, 외형의 변형, 보행 장애 등으로 방사선 촬영을 하다가 우연히 발견된다. 심하게 진행하는 경우에는 합병증이 동반되는 경우로 병적 골절을 동반하여 오는 경우나 척추골의 압박 변형에 의한 신경학적 이상, 두개골의 이환으로 뇌신경 압박에 의한 시력 장애나 청력 장애, 육종과 같은 악성 골종양으로의 이행, 전신 골조직의 침범에 의한 심박출량의 증가로 고 박출성 심부전으로 내원하는 경우가 있다. 이제까지의 국내 보고에 의하면 김 등이 1989년 대퇴골 병적 골절을 동반한 Paget 병 1예를 보고하였으며 1991년 최 등은 척골 주두에 발생한 Paget 병의 병적 골절을 2002년 정 등의 논문에서는 11명 중 한 명이 대퇴골의 병적 골절이 합병증이 발생함을 보고하였다<sup>4,6,7)</sup>. 가장 최근의 국외 논문에서는 2008년 미국의 Umayal 등이 치상돌기(odontoid)에 발생한 병적 골절을 보고한 바 있다<sup>8)</sup>. Paget 병의 말기 합병증은 다양하게 보일 수 있으나 병적 골절이 가장 흔한 것으로 알려져 있다<sup>9)</sup>. 이환되는 부위는 주로 물리적 스트레스가 가해지는 대퇴골, 경골, 요 천추 부위, 흉 요추골 등에서 발생한다고 하나 견갑골 늑골에서도 보고되었다. 대부분의 병적 골절은 완전 골절의 형태로 내원하나 본 예에서는 불완전 골절이 전하 하부 외측 피질 골에 발생하였다. 이 자체로도 통증을 야기할 수 있다고 한다. 따라서 Paget 병의 병적 골절과 특히 초기 불완전 병적 골절의 발견은 향후 치료 계획에 매우 중요하다고 할 수 있다. 불완전 골절과 완전 골절의 치료는 매우 다르기 때문에 더욱 의의 있다고 할 수 있다. 치료로는 장기간 석고 고정이나 관혈적 내고정을 통한 금속판 및 나사 고정 보다는 골수강 내 금속성 고정을 통하여 조기 보행을 하는 것이 더 좋다고 하였다<sup>1,7)</sup>. 대퇴 근위부를 침범했던 본 예에서 환자의 고관절 통증은 Paget 병 자체로도 가능하지만 불완전 스트레스 골절도 가능하기 때문에 불완전 스트레스 골절이 조기에 발견되었다면 인공 관절 치환술 보다는 금속성 삽입술이나 활동 제한 및 약물 치료가 더 합당한 치료가 되었으리라고 생각된다. 특히 이 환자의 경우에서 처럼 골두와 비구의 관절면이 비교적 잘 유지된 경우 관절 성형술은 합당한 수술이 아니라고 판단되며 심한 골다공증과 동반된 통증이 있으므로 골수강 내 정 삽입술이

합당한 치료라고 생각된다. 그러나 통증의 원인을 정확히 가리는 것은 어려운 것으로 알려져 있다<sup>10)</sup>. Paget 병의 약물 치료는 골 흡수를 억제하는 calcitonin, 파골세포와 조골세포의 RNA를 억제하는 mithramycin, hydroxylapetite를 안정시켜 골용해를 억제하는 bisphosphonate 제제 등이 알려져 있다<sup>1,4,5,7,9)</sup>. 본 증례의 경우 심한 골다공증이 동반되어 있어 alandronate를 사용하였으나 치료 효과에 대해서는 불분명하였다. 본 예에서처럼 인공 관절 치환술까지 시행한 이후에 병적 골절이 발생한 경우는 전 세계적으로 처음 있는 일이며 더욱이 수술 전 불완전 골절을 찾지 못함으로써 환자에게 더 큰 수술과 더 심각한 합병증을 초래하였다는 점은 매우 의의 있으며 따라서 Paget 병의 의심되거나 진단된다면 정확한 통증의 기원을 찾아야 하며 또한 미세한 불완전 골절을 꼭 찾아서 환자에게 합당한 치료를 해야 한다는 유익한 교훈을 줄 수 있다고 생각된다.

## REFERENCES

1. Suk SI, Cho SH, Ahn GH. *Paget's disease - one case report -*. J Korean Orthop Assoc. 1982;17:1031-4.
2. Cooper C, Dennison E, Schafheutle K, Kellingray S, Guyer P, Barker D. *Epidemiology of Paget's disease of bone*. Bone. 1999;24 Suppl:3S-5S.
3. Bastin S, Bird H, Gamble G, Cundy T. *Paget's disease of bone--becoming a rarity?* Rheumatology. 2009;48:1232-5.
4. Chung YG, Kang YK, Rhee SK, et al. *Skeletal manifestation of Paget's disease in Korean*. J Korean Orthop Assoc. 2002;37:649-53.
5. Yune SH, Lee KJ, Lee JK, Lee DI, Hwang DS. *Paget's disease of bone - 1 case report*. J Korean Orthop Assoc. 1982;17:1227-32.
6. Kim KH, Cho JL, Kim TS, Kim JS. *Paget's disease of bone with pathologic fracture of the femur - A case report*. J Korean Orthop Assoc. 1989;24:316-21.
7. Choi WS, Baik CH, Koh DH. *Paget's disease of bone - One case report -*. J Korean Orthop Assoc. 1991;26:970-4.
8. Sawardekar UG, Nadimpalli SP, Weisenberg E, Kranzler L. *An unusual presentation of Paget disease: pathological fracture of the odontoid*. J Neurosurg Spine. 2008;9:343-6.
9. Kim YU, Jeon YB, Oh IS, Seo KW, Baik IK. *Paget's disease - case report -*. J Korean Orthop Assoc. 1983;18:592-5.
10. Canale ST, Beaty JH. *Cambell's operative orthopaedics*. Vol. 1. 11th ed. St. Louise: Mosby; 2007. 388-9.

국문초록

## Paget 병에서 발생한 발견하지 못한 불완전 스트레스 골절 - 1예 보고 -

김홍균 · 유정한 · 박용욱 · 박진수 · 노규철 · 정국진 · 조민영 · 황지효

한림대학교 의과대학 강남성심병원 정형외과학교실

Paget 병은 파골 세포와 조골 세포의 과도한 활동이 골 조직의 파괴를 증가시키는 잘 알려진 근 골격계 골 대사 질환이다. 병적 골절은 가장 흔한 합병증 중의 하나로 주로 진행된 말기에 나타날 수 있으며 조기 발견은 향후 치료의 계획에 매우 중요한 단서가 된다. 저자들은 74세 여자 Paget 환자에 있어서 수술 전 근위 대퇴골에 발생한 불완전 스트레스 골절을 발견하지 못하고 인공 관절 치환술을 시행하고 이후 인공 관절 주위 골절을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

**색인단어:** Paget 병, 불완전 스트레스 골절, 근위 대퇴골