



성인에게 발생한 양측 발목의 건활막 지방종 아보레센스

곽희철, 김덕희, 노상명, 추혜정*, 김영준, 정준우, 정수환

인제대학교 의과대학 부산백병원 정형외과, *영상의학과

Tenosynovial Bilateral Lipoma Arborescens of the Ankle in Adults

Heui-Chul Gwak, Duck-Hee Kim, Sang-myung Roh, Hye-Jung Choo*,
Young-Jun Kim, Jun-Woo Jeong, Soo-Hwan Jung

Departments of Orthopedic Surgery and *Radiology, Inje University Busan Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Busan, Korea

Lipoma arborescens or synovial lipomatosis is a rare disorder that is characterized by mature fat infiltration of the hypertrophic synovial villi, most frequently affecting the supra-patellar pouch of the knee. This paper presents a case of lipoma arborescens of the ankle joint bilaterally in an adult patient with involvement of both the intra-articular synovium and the synovial sheath of the tendons around the ankle.

Key Words: Lipoma arborescens, Ankle, Tendons, Peroneal tendon sheath, Magnetic resonance imaging

‘지방종 아보레센스’라는 용어는 비대성 활막용모 내에 분산되게 침윤하는 지방세포의 형태를 설명하기 위해 사용되어 왔다. 지방종 아보레센스는 활막하 조직이 광범위하게 지방세포로 대체되는 것이 특징적이며 폴립모양의 지방 종괴를 생산하는 윤활막의 윤활세포들을 확인할 수 있다.^{1,2)} 조직학적으로는 활막의 용모형 지방종성 증식으로 보는 것이 더 적절한 표현이라고 볼 수 있겠다. 무릎 관절, 특히 슬개골상 주머니에 가장 흔히 호발하며 때때로 어깨, 팔꿈치, 고관절, 손목 및 손에 발생하는 것으로도 보고되고 있으며, 활막건초에 발생하는 경우는 매우 드문 것으로 알려져 있다.³⁾ 또한 일반적으로 일측성으로 발병하는 것으로 알려져 있다. 저자들은 성인 여자 환자에서 발목 주변의 장비골근(peroneus longus tendon) 및 단비골근(peroneus brevis tendon), 그리고 활막건초에 양측성으로 발생한 지방종 아보레센스 1예를 경험하여

임상 증상 및 자기공명영상(magnetic resonance imaging) 소견에 대해 보고하고자 한다.

본 증례 보고는 본원 임상연구 윤리위원회(Institutional Review Board)의 승인을 받았다.

증례 보고

47세 여자 환자가 6개월 전부터 시작된 양측 발목의 통증과 종창이 점차 악화되어 외래를 통해 내원하였다. 20년 전부터 환자는 양측 발목의 통증, 뻣뻣함 및 종창이 간헐적으로 있어 왔다. 보행 중이나 운동을 할 때에 증상이 심해졌고 조조강직, 피부의 문제, 전신 증상, 그리고 다른 관절의 이상 소견은 발견되지 않았다.

과거력상 외상력이나 기저질환은 없었으며 류마티스 관절염이나 결핵과 같은 전신 질환의 병력도 없었다. 직장에서는 영양사로 하루 종일 서서 근무하는 직업을 가지고 있었고, 가족력으로 환자의 모친이 류마티스 관절염으로 진단받았다.

신체 진찰에서 양측 발목 주위로 홍반이나 열감은 없었으나 양측 발목의 후·외측, 특히 비골 굴곡 건(peroneal flexor tendons) 주변부로 연부조직의 종창과 경미한 압통을 확인할 수 있었다(Fig. 1).

Received September 7, 2018 Revised February 5, 2019 Accepted February 12, 2019

Corresponding Author: Duck-Hee Kim

Department of Orthopedic Surgery, Inje University Busan Paik Hospital, Inje University College of Medicine, 75 Bokji-ro, Busanjin-gu, Busan 47392, Korea
Tel: 82-51-890-8666, Fax: 82-51-892-6619, E-mail: rmaqjawjr@gmail.com
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-4144-3671>

Financial support: None.

Conflict of interest: None.

Copyright ©2019 Korean Foot and Ankle Society. All rights reserved.

©This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

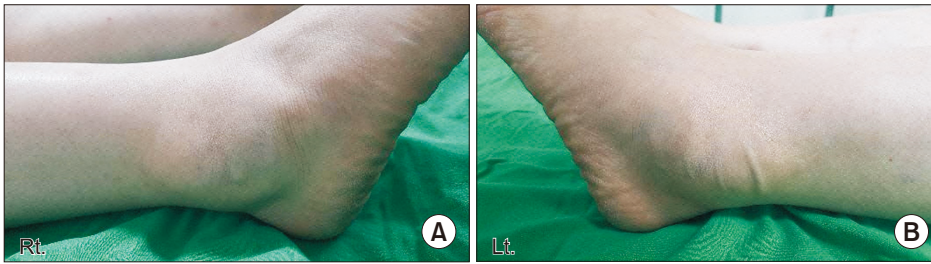


Figure 1. Photographs of the right ankle (A) and the left ankle (B) show soft-tissue swelling around lateral malleolus. Soft and movable mass-like lesion (A: 5×7 cm size, B: 4×6 cm size) was observed.

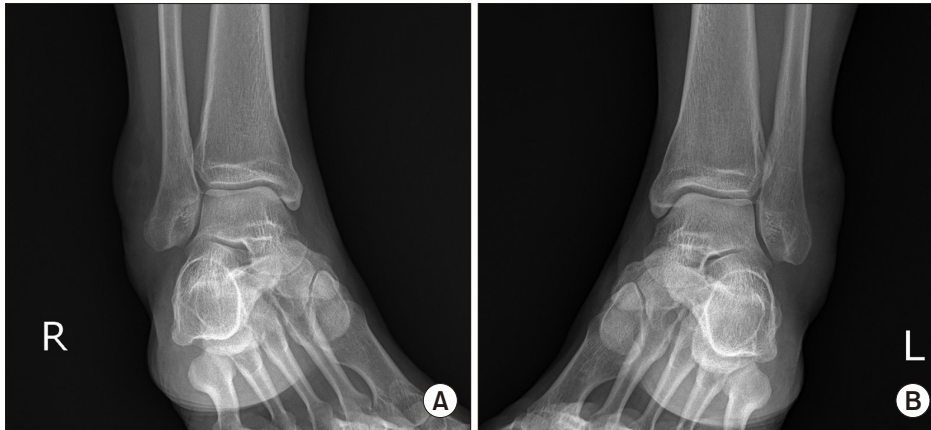


Figure 2. Internal oblique radiographs of the right ankle (A) and the left ankle (B) show soft tissue swelling of the postero-lateral ankle.

양측 발목을 최대 발바닥 굽힘(plantarflexion) 및 발등 굽힘(dorsiflexion) 시에 환자는 경미한 통증을 호소하였으며 양측 발목의 관절가동 범위(range of motion)는 정상이며 불안정성도 없었다. 좌측 단비골근(peroneus brevis muscle)의 근력은 정상이었지만 우측 단비골근의 근력은 저하되어 있었다. 장비골근(peroneus longus muscle)의 근력은 양측 발목에서 모두 저하되어 있었다. 또한 신경학적 검사 및 혈관 검사에서 신경병증이나 허혈(ischemia) 증상은 보이지 않았다.

혈액학적 검사에서 C-reactive protein, erythrocyte sedimentation rate 및 요산 수치는 정상 범위 내였으며 rheumatoid factor와 anti-cyclic citrullinated peptide 항체, 그리고 human leukocyte antigen-B27 항체 검사 모두 음성이었다.

술 전 시행한 단순 방사선학적 검사에서 양측 발목의 후-외측 영역에서 연부조직의 종창을 제외하고는 정상 소견을 보였다. 골 미란(bone erosion)과 같은 명확한 골 병변 및 발목 관절의 이상 소견은 보이지 않았다(Fig. 2).

양측 발목 관절의 초음파 검사상 비골근건(peroneal tendons)의 중등도의 건막염 소견 및 양측 발목의 후-외측 부위에서 염증성 관절염 소견과 함께 관절 삼출을 확인하였다(Fig. 3).

자기공명영상상 우측 발목의 단비골근건, 장비골근건, 후경골근건(posterior tibialis tendon), 장모지골근건(flexor hallucis longus tendon), 장지골근건(flexor digitorum longus tendon)의 건초 및 가쪽 복사뼈(lateral malleolus) 점액낭에서 삼출액 형성과 다수의 저신호 강도를 보이는 유체(body)를 확인하였고, 단비골근건의 세로방향으로 갈라지는 파열 소견이 있었다. 전반적인 골 이상은 없

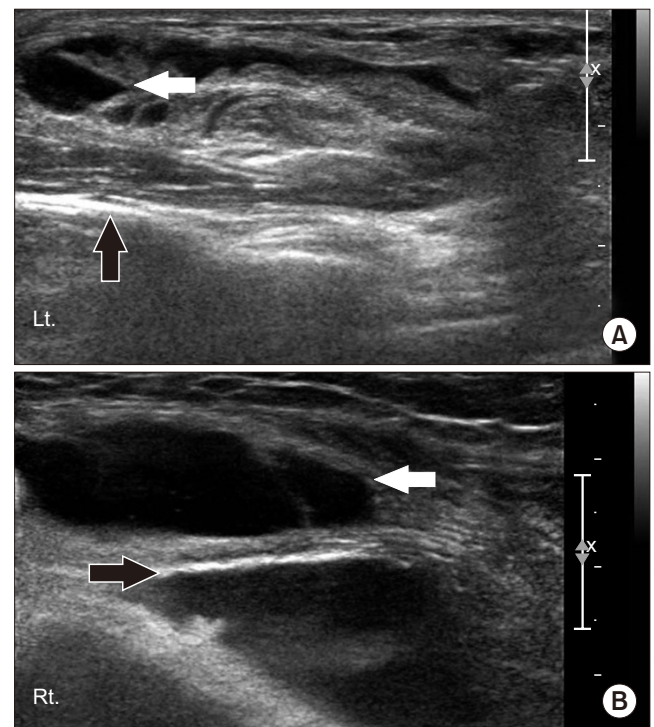


Figure 3. (A, B) Ultrasound scan, longitudinal view, shows encasement of the extensor tendons by the thickened synovium (black arrows). A large amount of joint effusion in lateral aspect of both ankles (white arrows).

었다(Fig. 4).

좌측 발목에서도 단비골근건, 장비골근건, 후경골근건, 장모지골근건, 장지골근건의 건초 및 가쪽 복사뼈 점액낭에서 삼출액 형

성과 함께 엽상체 모양의 활막 증식(frond-like proliferation) 소견을 보였다. 전반적으로 골 이상은 없었으나 전거비 인대의 만성적인 부분 파열을 발견하였다(Fig. 5).

또한 양측 발목의 골 이상은 확인되지 않았으며 C-reactive protein, erythrocyte sedimentation rate 정상, rheumatoid factor와 anti-cyclic citrullinated peptide 항체 또한 음성으로 류마티스 관절염은 진단에서 배제할 수 있었다.

환자에게 보존적 치료를 시행하였고 통증 증상의 완화를 위해 진통소염제(non-steroidal anti-inflammatory drugs)를 경구 복용하였지만 동통은 크게 호전되지 않았으며 치료를 위해 수술적 절제를 시행하였다. 수술장에서 장비골근건과 단비골근건을 따라 광범

위하게 건막초를 침범하는 활막염 소견을 확인하였으며 우측 발목의 단비골근건에 있어서 세로방향으로 갈라지는 파열이 확인되었다(Fig. 6).

양측 발목의 비골근건 활막건초에 발병한 다수의 섬유지방조직들을 활막절제술을 통해서 절제하였다. 장비골근건과 단비골근건을 부분적으로 절제하였으며(Fig. 7) 변연절제술 및 절제 부위에 대한 봉합을 시행하였다.

병리학적 소견상 특징적으로 활액막하 층에서 성숙한 지방세포를 확인할 수 있었으며, 지방종 아보레센스로 진단하였다(Fig. 8).

퇴원 후, 1년간 외래를 통해 경과 관찰한 결과 환자의 통증은 감소하였고 장비골근과 단비골근의 근력도 회복되는 것을 확인할 수 있었다. 또한 수술 이후의 합병증과 지방종 아보레센스의 재발은

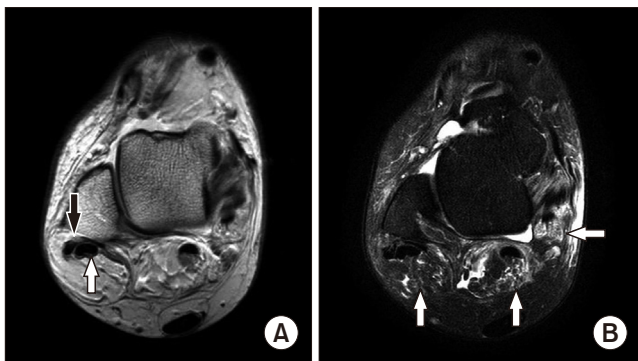


Figure 4. (A) Axial proton density-weighted magnetic resonance image showing high signal intensity within the peroneus brevis tendon at the postero-lateral malleolar level representing longitudinal tear (black arrow). The peroneus longus tendon (white arrow) is normal. (B) Axial T2-weighted fat-suppression magnetic resonance image at the corresponding level shows fluid collection with frond-like proliferations of the synovium of the involved tendon sheaths and ankle joint, with low signal intensity of the hyperplastic fat tissues (white arrows).

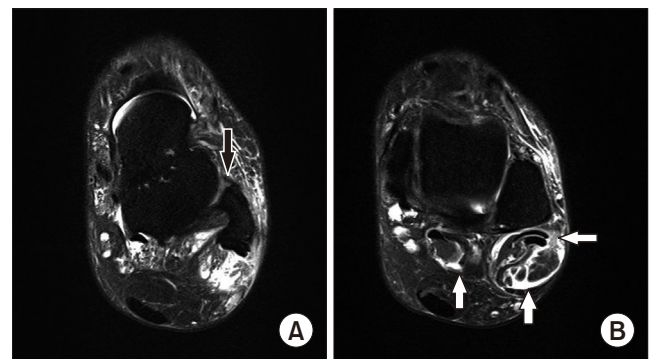


Figure 5. (A) The Anterior talofibular ligament is thin and has irregular margin and suspicious disruption of contour, meaning a chronic partial tear (black arrow). (B) Axial T2-weighted fat-suppression magnetic resonance image at the corresponding level shows fluid collection with frond-like proliferations of the synovium of the involved tendon sheaths and ankle joint, with low signal intensity of the hyperplastic fat tissues (white arrows).

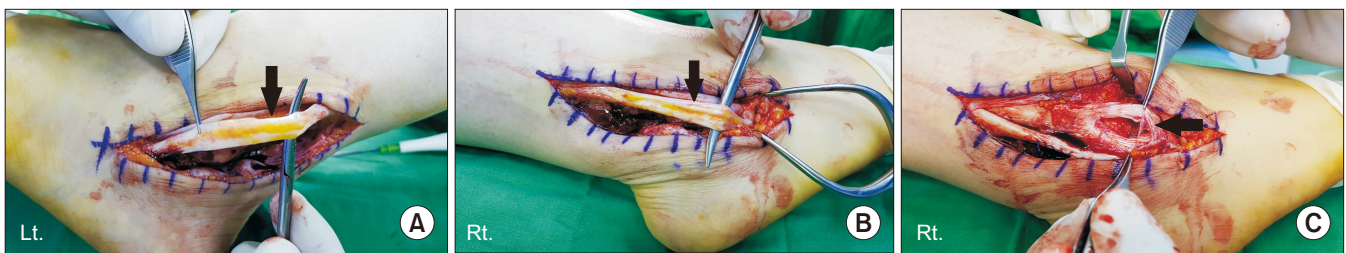


Figure 6. (A, B) Intraoperative photographs demonstrate abundant fat within the opened peroneal tendon sheath and partial tear of peroneus longus tendon in both ankles (black arrows). (C) There is a longitudinal split tear of the peroneus brevis tendon (black arrow).

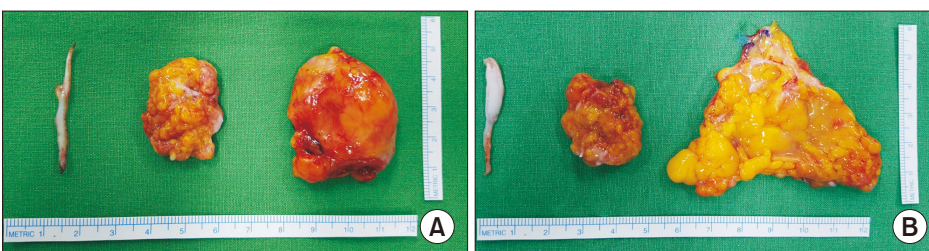


Figure 7. Gross photos of mass which are lipoma arborescence with abundant fat tissue and remnant of peroneus longus tendon in left ankle (A: 2×5 cm sized, 3.5 cm sized mass) and in right ankle (B: 2×2.5 cm sized, 6×6 cm sized mass).

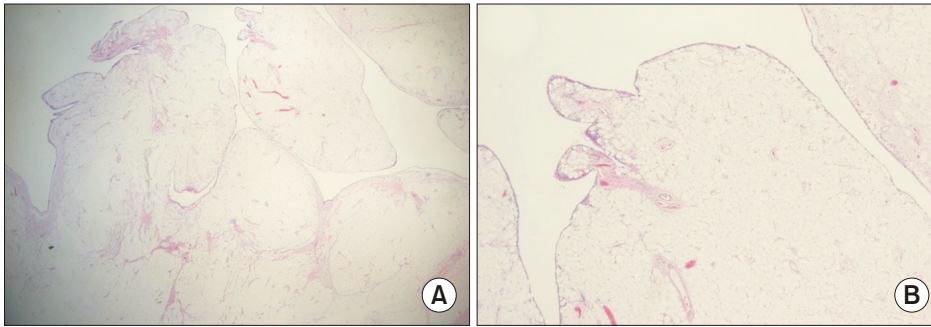


Figure 8. (A) Photomicrographs of excised synovium showing a lipomatous infiltrate within the synovium. On low power, a fatty infiltrate is seen in the synovium, giving it a lobular or villous contour (H&E stain, ×40). (B) High magnification shows mature adipose cells deep to a hyperplastic layer of synovial cells with scattered inflammatory cells and small plexiform vessels (H&E stain, ×40).

발생하지 않았다.

고 찰

지방종 아보레센스는 일반적으로 무릎에 호발하며 잘 알려져 있지 않은 드문 질환으로, 양측성보다는 일측성으로 발병한다. 대개 단일 관절을 침범하지만 약 20%의 경우에 있어서 양측성으로 발병하는 것으로 보고되고 있고⁴⁾ 대부분의 환자의 연령은 50세에서 70세이다. 정확한 병인은 알려져 있지 않지만 만성 류마티스 관절염, 골관절염 또는 외상과 연관성이 있을 것으로 보고되고 있다.¹⁾ 특징적으로 활액세포에 덮여 있는 활액막하 조직이 광범위하게 지방세포로 대체되는 형태를 현미경으로 확인할 수 있다. 지방종 아보레센스의 치료는 활액막 절제술이고 재발하는 경우는 흔하지 않다.⁵⁾

지방종 아보레센스의 영상학적인 특징은 매우 전형적이다. 일반 방사선 사진에서는 발목 관절 주변 연조직의 부종 및 지방조직으로 인한 방사선 투과성의 음영 관찰을 확인할 수 있으며 일반적인 퇴행성 변화, 그리고 뼈의 부식과 같은 병변을 동반할 수도 있다. 또한 초음파 검사를 통해 관절 삼출 및 용모 모양의 돌기와 함께 두꺼워진 활막을 확인할 수 있다.

자기공명영상은 지방종 아보레센스의 특징적인 활막 용모의 증식과 지방세포를 확인할 수 있기 때문에 진단을 위한 가장 중요한 도구이다.⁶⁾ 지방세포는 전형적으로 자기공명영상에서 T1 가중 및 T2 가중 시퀀스에서 모두에서 높은 신호 강도를 보이고 피하조직과 비슷한 강도의 신호를 나타낸다.

많은 경우에 있어서 비골근건 주변부의 종창이 정상적인 지방의 침착의 결과로 나타날 수 있다. 하지만 지방종 아보레센스는 건막 내에 존재하며 액체 저류를 동반하는 것이 특징적이며 영상, 병리 조직학적으로 위의 특징들을 확인하여 정상적인 지방 침착과 구별할 수가 있다.

2002년 Siva 등⁷⁾은 선천성 짧은 창자증후군을 가진 35세 남자 환자에게서 무릎, 손목, 손, 굴곡근 및 신근 건초 양측에 침범하는 지방종 아보레센스의 첫 번째 사례를 기술하였다. 2006년 Huang 등⁸⁾은 좌측 발목 관절과 인접한 굴곡 건 및 비골 건의 활막초(synovial

sheath)에 발생한 지방종 아보레센스를 진단받은 12세 소녀를 보고했다. 또한, 2018년에 Hughes 등⁹⁾은 양측 발목에 건막염이 있는 환자의 지방종 아보레센스에 대해 보고하였다.

우리는 성인 환자에서 양측 발목의 활막 및 건과 건초를 침범하는 지방종 아보레센스를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다. 또한, 자기공명영상의 특징적인 영상학적 소견을 통해 지방종 아보레센스를 조기에 진단하고 이를 통해 불필요한 검사를 최소화하며 적절한 시기에 환자를 치료하는 데에 도움이 될 것이라고 확신하는 바이다.

REFERENCES

1. Vilanova JC, Barceló J, Villalón M, Aldomà J, Delgado E, Zapater I. MR imaging of lipoma arborescens and the associated lesions. *Skeletal Radiol.* 2003;32:504-9.
2. Kakkar N, Vasishta RK, Anand H. Pathological case of the month. Synovial lipomatosis. *Arch Pediatr Adolesc Med.* 1999;153:203-4.
3. Laorr A, Peterfy CG, Tirman PF, Rabassa AE. Lipoma arborescens of the shoulder: magnetic resonance imaging findings. *Can Assoc Radiol J.* 1995;46:311-3.
4. Arzimanoglu A. Bilateral arborescent lipoma of the knee: a case report. *J Bone Joint Surg Am.* 1957;39:976-9.
5. Hallel T, Lew S, Bansal M. Villous lipomatous proliferation of the synovial membrane (lipoma arborescens). *J Bone Joint Surg Am.* 1988;70:264-70.
6. Soler T, Rodríguez E, Bargiela A, Da Riba M. Lipoma arborescens of the knee: MR characteristics in 13 joints. *J Comput Assist Tomogr.* 1998;22:605-9.
7. Siva C, Brasington R, Totty W, Sotelo A, Atkinson J. Synovial lipomatosis (lipoma arborescens) affecting multiple joints in a patient with congenital short bowel syndrome. *J Rheumatol.* 2002;29:1088-92.
8. Huang GS, Lee HS, Hsu YC, Kao HW, Lee HH, Chen CY. Tenosynovial lipoma arborescens of the ankle in a child. *Skeletal Radiol.* 2006;35:244-7.
9. Hughes M, Burt S, Ramabhadran B. Lipoma arborescens-a rare cause of bilateral ankle tenosynovitis. *Rheumatology (Oxford).* 2018;57:762-3.