

혈우병성 족관절염 환자에서 관절경적 활액막 제거술의 단기 추시 결과

이재훈 • 정덕환* • 김동희^{†‡}

경희대학교 의과대학 강동경희대학교병원 정형외과학교실, *경희의료원 정형외과학교실,
[†]성균관대학교 의과대학 삼성창원병원 정형외과학교실

Short-Term Outcomes of Arthroscopic Synovectomy for Hemophilic Ankle Arthropathy

Jae Hoon Lee, M.D., Duke-Whan Chung, M.D.*, and Dong Hee Kim, M.D.^{†‡}

Department of Orthopedic Surgery, Kyung Hee University Hospital at Gangdong, *Department of Orthopedic Surgery,
Kyung Hee University Medical Center, Kyung Hee University School of Medicine, Seoul, [†]Department of Orthopaedic Surgery,
Samsung Changwon Hospital, Sungkyunkwan University School of Medicine, Changwon, Korea

Purpose: This study reports on the results of clinical and radiological evaluation of arthroscopic synovectomy in hemophilic ankle arthropathy.

Materials and Methods: Between September 2006 and December 2008, arthroscopic synovectomy was performed on 35 ankle joints in 33 patients with hemophilic ankle arthropathy. The mean follow-up period was 30 months. The range of motion of joint and frequency of intra-articular bleeding and factor dose were evaluated for this study. American Orthopaedic Foot and Ankle Society (AOFAS) ankle and hind foot score and subjective satisfaction were used for clinical assessment. Arnolf and Hilgartner classification was used for radiological assessment.

Results: The mean dorsiflexion and plantar flexion were 10.1°, 30.1°, respectively, at preoperation and 11.3°, 28.2°, respectively on the final day of follow-up with no significant difference in the range of motion. The mean frequency of hemarthrosis decreased significantly to 0.6 times per month postoperative ($p < 0.05$). The mean amount of factor replacement decreased from 5,320 units/mo preoperative to 4,568 units/mo postoperative with no significance difference. AOFAS ankle and hind foot score was improved to 90 points postoperative with significance. On radiologic evaluation, 33 cases showed no significant changes, while two cases had progressed at the last follow-up.

Conclusion: Arthroscopic synovectomy for recurrent hemarthrosis in hemophilic ankle arthropathy is a useful method for familiar procedure, decreasing bleeding episodes and subjective satisfaction.

Key words: ankle joint, hemophilia, arthroscopic synovetomy

서 론

혈우병은 혈액 응고 인자의 결핍을 특징으로 한 성염색체 열성

유전질환으로 항혈우병 인자(antihemophilic factor)의 결핍된 종류에 따라 혈우병 A (factor VIII deficiency), 혈우병 B (factor IX deficiency), 폰 빌레브란트 병(von Willebrand's disease, von Willebrand factor deficiency)으로 분류된다.¹⁾ 정형외과적으로는 환자의 성장과 함께 활동력이 왕성해짐에 따라 근육 및 관절 주위 조직 그리고 관절강 내 출혈을 야기하여 관절염 및 관절 변형 등 심각한 장애를 유발하는 질환이다. 초기 단계의 혈우병성 관절염의 치료로는 예방적으로 혈액 응고인자를 투여하는 방법과 수술적

Received March 4, 2014 Revised July 16, 2014 Accepted August 13, 2014

[‡]Correspondence to: Dong Hee Kim M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, Samsung Changwon Hospital, Sungkyunkwan University School of Medicine, 158 Paryong-ro, Masanhoewon-gu, Changwon 630-723, Korea

TEL: +82-55-290-6030 FAX: +82-55-290-6259 E-mail: dhkim1149@gmail.com

혹은 방사선 동위원소의 관절 내 주입을 통한 활액막 제거술을 시행할 수 있으며 이는 관절강 내 출혈 빈도를 감소시켜 관절염의 진행을 지연시키거나 막아주는 효과적인 치료 방법으로 알려져 있다.^{1,2)}

방사선 동위원소를 이용한 활액막 제거술은 시술이 용이하나 출혈 조절 능력이 제한적이며 관절로부터 방사능이 유출되어 비목표 기관의 손상이 발생할 가능성이 있는 단점이 있다. 수술적 치료 방법으로는 개방적 혹은 관절경적 활액막 제거술이 있으며, 개방적 활액막 제거술은 특별한 수술기구 없이 시행가능하나 관절 운동범위의 감소, 감염, 피부 괴사 등 합병증의 발생률이 높다. 관절경적 활액막 제거술은 절개가 작아 술 후 운동범위가 유지되는 장점이 있으나 모든 병적인 활액막을 제거하기 힘든 단점이 있다.²⁾

여러 방법들에 따른 혈우병성 관절염의 치료연구들이 국내외에서 지속적으로 이루어지고 있으나 아직 국내에는 족관절에서의 치료 결과 보고가 없다. 저자들은 이번 연구에서 족관절의 혈우병성 관절염 환자에 대하여 관절경적 활액막 제거술을 시행한 후 임상적, 방사선적 단기 추시 결과를 보고하고자 한다.

대상 및 방법

1. 연구대상

2006년 9월부터 2008년 12월까지 족관절의 혈우병성 관절병증에 대하여 관절경적 활액막 제거술을 시행받은 총 33명, 35예의 족관절을 후향적으로 분석하였다. 수술은 항혈우 인자 투여, 보조기 사용, 활동의 제한에도 불구하고 지속적인 발목관절의 출혈, 통증, 운동 제한을 호소하는 경우 시행하였으며, 전체 예에서 수술 전 자기공명영상 촬영을 시행하여 관절 연골의 상태와 활액막 비후 정도를 확인하였다. 술 후 추시 기간은 평균 2년 6개월(범위, 1년 8개월-4년)이었다. 환자군은 35예 모두 남자였으며, 수술 당시 연령은 평균 13세(범위, 7-52세)이며, 10세 이하가 5명, 11세 이상에서 20세 이하가 9명, 21세 이상에서 30세 이하가 13명, 31세 이상에서 40세 이하가 4명, 41세 이상이 2명이었다. 혈우병 형태별로는 8번 인자 결핍증(A형)이 25예, 9번 인자 결핍증(B형)이 10예였으며, 대상 환자 중에 항혈우병성 인자에 대한 inhibitor가 존재하는 예는 없었다. 모든 환자는 항혈우병성 인자가 정상의 5% 미만이었다. 방사선학적 Arnold & Hilgartner 분류상 병기 2기의 환자 10예, 3기의 환자 12예, 4기의 환자 13예였다. 임상적으로 수술 전 1년간 출혈의 빈도는 평균 4.1회/mo (범위, 2-8회/mo)였으며, 투여한 항혈우병 인자의 양은 평균 5,320 units/mo (범위, 750-18,000 units/mo)이었다. 족관절의 운동 범위는 술 전 족배굴곡 평균 10.1° (범위, 0°-25°), 족저굴곡은 평균 30.1° (범위, 10°-45°)였으며, 미국 족부족관절학회 족관절 및 후족부 점수(American Orthopaedic Foot and Ankle Society [AOFAS] ankle and hindfoot score)은 79.8점이었다.

2. 혈액학적 처치

모든 환자에서 수술 전에 complete blood count, prothrombin time partial thromboplastin time, 응고인자의 혈중 농도와 응고 억제인자(inhibitor) 보유여부를 포함하는 지혈기능에 대한 선별 검사를 시행하였으며, 응고 억제인자가 존재하지 않는 것을 확인하였다. 8번 항혈우병 인자 투여는 수술 1시간 전 체중 1 kg당 50단위(9번 인자는 체중 1 kg당 65단위)를 투여하고, 수술 중 혈중 농도를 확인 후 수술 전, 후로 혈중농도가 100%가 되도록 주입하였다. 수술 후 3일까지는 100%를 유지하도록 하고, 수술 후 4일에서 6일까지 80%, 7일에서 9일까지 60%, 이후는 40%를 유지하였다. 8번 인자의 반감기는 8시간, 9번 인자의 반감기는 12시간이므로 8번 인자는 1일 3회, 9번 인자는 1일 2회 투여하였다. 수술 후 3일이 지난 경우라도 수술 부위의 삼출이나 출혈이 심한 경우, 환자 스스로 출혈의 자각 증상이 있는 경우, 배액관을 통한 지속적인 출혈 소견을 보이는 경우 혈액응고 인자량의 100%를 목표로 추가적인 혈액응고 인자의 투여를 계획하였으나 추가적인 투여 환자는 없었다.

3. 수술 방법

모든 환자에서 전신 마취하에 수술을 시행하였다. 지혈대를 사용하였으며 수술은 전체 예에서 3부위의 삽입구(전내측, 전외측 및 후외측 삽입구)를 이용하여 시행하였다. 활액막이 유착되어 관절 운동에 영향을 미칠 것으로 판단되는 경우 병적인 활액막 및 유착된 조직을 최대한 제거하였으며(Fig. 1) 전방 경거골 부분의 비후성 골극에 의한 충돌(impingement) 소견이 보이는 경우에는 이를 제거하였다. 술 중 추가적인 삽입구나 개방적 활액막 제거술을 시행한 경우는 없었다. 수술 후 족배굴곡 및 족저굴곡 최종 확인하여 관절 운동 범위를 확인하였으며, 배액관을 삽입하고 모든 환자에게 단하지 부목을 적용하였다. 하루 배액량이 20 ml 이하 일 때 배액관을 제거하였으며, 단하지 부목은 수술 후 2주간 유지하였다.

4. 평가 방법

임상적 분석으로 술 전과 술 후, 마지막 외래 추시 시의 출혈 빈도, 혈액응고 인자의 평균 투여량 및 족관절의 운동 범위를 조사하여 비교하였다. 출혈은 환자가 관절의 따뜻한 부종 및 통증을 호소하며 스스로 출혈을 자각하는 경우를 기록하였으며 총 출혈 횟수를 기록하도록 하여 이를 기간으로 나누어 평균을 구하였다.

AOFAS 족관절 및 후족부 점수 및 주관적 평가 방법(매우 호전, 약간의 호전, 변화 없음, 악화)을 조사하였으며, 방사선적으로는 수술자 중 1인이 수술 전, 후의 Arnold & Hilgartner 분류를 사용하여 비교하였다. 각 항목의 술 전, 후의 평균치를 구한 후, 통계적인 분석 방법은 SPSS Window version 21.0 (SPSS Inc., Chicago, IL, USA)를 이용하여 기본적으로 paired sample t-test를 사



Figure 1. (A) Preoperative antero-posterior and lateral radiographs of a 19-year-old boy show that there is no joint space narrowing and cyst. (B) Arthroscopic finding shows moderate synovial hypertrophy and synovial band formation.

용하였으며 수술 전, 후의 단기 추시 기간 동안 출혈빈도 비교는 repeated measure ANOVA를 시행한 뒤 Bonferroni correction을 적용하였다. 합병증으로 관절의 종창, 감염, 수술 부위의 출혈 등을 관찰하였다.

결 과

1. 관절 각도

술 후 족관절의 평균 운동범위는 족배굴곡 평균 11.3° (범위, $0^\circ-25^\circ$), 족저굴곡 평균 28.2° (범위, $10^\circ-40^\circ$)로 수술 전 족배굴곡 평균 10.1° (범위, $0^\circ-25^\circ$), 족저굴곡 평균 30.1° (범위, $10^\circ-45^\circ$)에 비하여 족배굴곡 및 족저굴곡 모두에서 차이가 없었다(족배굴곡 $p>0.05$, 족저굴곡 $p>0.05$).

2. 출혈의 빈도

수술 전, 후 월 평균 출혈 빈도를 비교해보면 술 전 평균 4.06회(범위, 1-8회)에서 술 후 평균 0.6회(범위, 0-1.3)로 술 후에 출혈 빈도가 현저히 감소하였으며, 모두 통계적 유의성을 보였다($p<0.05$).

특히 수술 후 18개월을 각각 3, 3, 3, 6개월 단위로 출혈경향을 분석하였을 때 수술 후 3개월까지 평균 0.3회(범위, 0-3회), 4개월부터 6개월까지 평균 0.41회(범위, 0-2.33회), 7개월부터 9개월까지 평균 0.48회(범위, 0-2.33회), 10개월부터 12개월까지 평균 0.46회(범위, 0-2.67회), 13개월부터 18개월까지 평균 0.57회(범위, 0-2.67회)를 보였다(Fig. 2). 수술 전과 수술 후 각 3개월 이내, 3-6개월, 7-9개월, 10-12개월, 13-18개월 기간의 출혈빈도를 비교하였을 때 모두 유의하게 감소하였으며($p<0.001$), 수술 후 각 3개월

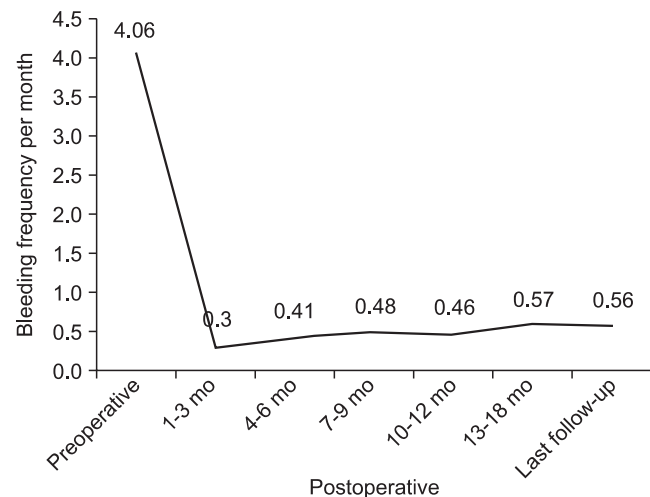


Figure 2. Serial outcomes of bleeding frequency.

이내, 3-6개월, 7-9개월, 10-12개월, 13-18개월 기간을 서로 비교하였을 때 통계적 유의성은 모두 없었다($p=1.000$).

3. 항혈우인자의 투여량

수술 후 한 달 평균 투여량은 4,568 units/mo (범위, 0-16,000 units/mo)로 수술 전 항혈우 인자 투여량은 평균 5,320 units/mo (범위, 750-18,000 units/mo)에 비해 감소하였으나 통계적으로 유의하지 않았다($p>0.05$) (Table 1).

4. 방사선적 평가

단순 방사선 사진의 Arnold & Hilgartner 분류는 최종 추시 시 2기

Table 1. Mean Amount of Factor Replacement, Mean Frequency of Hemarthrosis, and AOFAS Score before and after Arthroscopic Synovectomy

	Preoperative	Postoperative	p-value
The mean amount of factor replacement (units/mo)	5,320.37	4,568.52	0.368
The mean frequency of hemarthrosis (time/mo)	4.06	0.56	0.000
AOFAS score	79.88	90.08	0.000

AOFAS, American Orthopaedic Foot and Ankle Society.

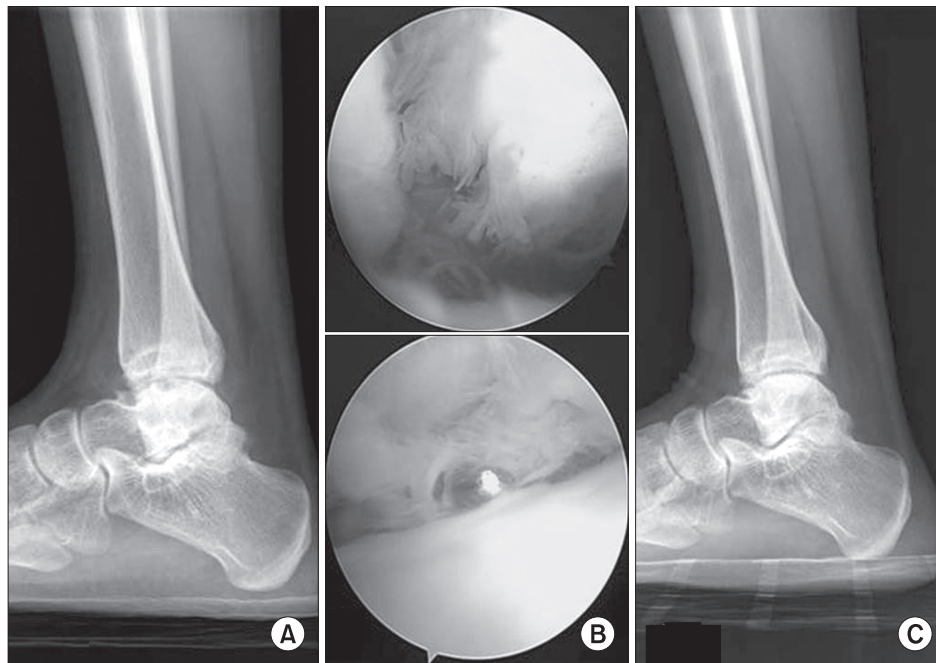


Figure 3. (A) Preoperative antero-posterior and lateral radiographs of a 17-year-old boy showing narrow joint space and anterior beaking of the talus. (B) Arthroscopic finding shows synovial proliferation. We performed synovectomy. (C) Two years later, this radiographs show no evidence of disease progression.

9예, 3기 12예, 4기 14예로, 총 35예 중 33예에서 술 전에 비해 변화가 없었다(Fig. 3). 진행된 2예 중 1예는 23세 8번 인자 결핍형 남자 환자로 같은 시기에 양측 족관절에 관절경적 활막 제거술을 시행하였으며, 우측 족관절은 술 전 3기에서 최종 추시 43개월에 3기로 변화가 없었으나 좌측 족관절은 술 전 2기에서 술 후 3기로 진행하였다. 다른 1예는 25세 남자로 8번 인자 결핍형 혈우병 환자였으며 술 전 3기에서 최종 추시 26개월에 4기로 진행하였다.

5. AOFAS 족관절 및 후족부 점수 및 주관적 평가

AOFAS 점수는 수술 전 평균 79.8점에서 수술 후 평균 90.0점으로 향상되었다($p < 0.001$). 주관적 평가는 최종 추시 시 술 전에 비해 매우 호전 혹은 약간의 호전이 28예로 80%에서 만족스러운 결과를 보였다.

고찰

혈우병성 관절염은 모든 관절에서 나타날 수 있으며 슬관절, 주관절, 족관절 순으로 흔하다. 병리 기전을 살펴보면 환자가 보행을 시작하면서 관절강 내 출혈을 일으키게 되고 활액막을 자극

하여 활액막의 비후와 염증반응을 일으킨다. 이러한 변화는 더욱 쉽게 관절강 내 출혈을 일으키는 요인으로 작용하여 악순환을 반복하게 된다. 이 과정에서 분비되는 단백분해 효소는 연골을 파괴시키며 결과적으로 만성 혈우병성 관절병증, 관절 강직이나 구축, 변형을 일으키게 된다.^{1,3)} 보통 2세에서 5세 사이에 처음 관절강 내 출혈을 일으키는 것으로 알려져 있으나 몇 회의 출혈이 관절의 손상을 일으키는지는 아직 명확하지 않다.^{4,5)}

혈우병성 관절염을 치료하기 위한 방법으로 예방적인 측면에서 혈우병성 관절염이 발생 전 미리 응고인자를 투여하는 방법이 있다. 2세 이전부터 혈액 응고 인자를 일정 농도 수준으로 유지되도록 투여하여 관절강 내 출혈 횟수를 줄이는 방법으로 이 예방요법은 출혈빈도나 혈우병성 관절염 및 그 외의 합병증도 줄인다고 보고되었다. 일부 전향적 연구에서는 예방요법이 혈우병성 관절염 발생 후 시행하는 치료보다 우월한 결과를 보이기도 하였으나 아직 무작위 전향적 연구의 부재로 좀 더 연구가 필요한 상태이다.⁶⁻⁸⁾ 일반적으로 1, 2세에 관절 출혈이 없거나 한 차례 관절강 내 출혈 증상이 있던 환자에게 투여를 시작하며 아직 적응증이 되는 나이에 대해 논란이 있다.⁴⁻⁶⁾ 예방적 치료법의 가장 큰 문제점은 비용적인 측면으로 환자가 장기간 응고인자를 투여해야

하기 때문에 발생하는 의료비 외에도 환자의 삶의 질이 떨어지면서 발생하는 손실이 매우 크며 국내에서는 아직 보험급여도 되지 않는 실정이다.

혈우병성 관절염이 발생한 이후에는 해당 관절에 방사선 동위원소를 이용하거나 수술적으로 활액막을 절제하는 방법이 주로 사용되고 있으며 그 외 저선량의 방사선 치료를 이용하는 방법도 소개되고 있다.⁹⁾ 방사선 동위원소를 이용한 활액막 제거술은 ⁹⁰Yttrium, ³²Phosphorus 등의 방사선 동위원소를 이환된 관절에 주사하는 방법으로 활액막하 결체 조직과 혈관에 섬유화를 일으켜 관절 출혈을 줄이는 방법이다. 쉽게 시행할 수 있고 반복적으로 사용도 가능한 장점이 있으나 방사선 동위원소가 준비되어야 한다는 전제가 따라야 한다. 또한 방사선 동위원소에 노출됨으로써 발생할 수 있는 위험성이 확실히 밝혀지지 않아 이에 대한 연구도 계속 필요하다.¹⁰⁻¹²⁾ 이를 대체하기 위해 Rifampicin 등의 약물을 투여하는 방법도 있으나 이는 통증이 매우 심하여 덜 선호된다.²⁾

수술적으로 활액막을 제거하는 방법은 개방적 방법과 관절경적 방법이 있다. 슬관절 같은 큰 관절의 경우는 관절경적 방법이 선호되며,¹³⁻¹⁵⁾ 족관절이나 주관절 같이 작은 관절의 경우는 과거 개방적 활액막 제거술을 많이 시행하였으나 최근에는 관절경 수술의 발달로 관절경적 활액막 제거술이 더 선호되고 있다.¹⁶⁻²⁰⁾ 국내에서는 Yoon 등¹³⁾이 혈우병성 슬관절염 28예를 관절경적 활액막 제거술을 시행하여 보고하였는데 술 전에 비하여 술 후 출혈 횟수 및 혈액 응고인자 투여량이 줄었다. 또한 43%에서 관절 운동 범위가 호전되었으며 20%에서 운동 범위가 유지되어 비교적 좋은 결과를 보였다. 비슷한 외국의 연구에서는 개방적 활액막 제거술에 비해 관절경적 제거술이 운동범위를 유지하게 해주나 호전되지는 않는 것으로 보고하고 있다.^{14,15,18)} 그 외에도 관절경적 활액막 절제술은 개방적 술식에 비해 절개가 작아 통증이나 술 후 합병증의 빈도도 적은 편이다. 단점은 관절경을 이용할 경우 삽입구에서 잘 보이지 않는 부분의 활액막 제거가 어렵다는 점이다. 최근에는 여러 개의 삽입구를 이용하여 이전에 제거하기 어려웠던 부위의 활액막 제거가 가능해지면서 술 후의 결과도 점차 향상되고 있다.^{15,20)} 비용적인 측면에서도 지속적인 혈우병성 관절염으로 응고인자 투여 및 반복적인 입원치료에 비하여 관절경적 활액막 제거술을 시행한 경우가 술 후 의료비용이 절감되는 효과가 있었다.²¹⁾

아직 국내에서는 족관절에서 시행된 활액막 제거술에 대한 보고가 없다. 외국에서도 슬관절에 비해 족관절에 대한 활액막 절제술과 관련된 임상 결과는 적은 편이다(Table 2).^{2,18,19,22-25)} 앞서 보고된 연구들에서는 방사선적으로나 관절 운동범위의 경우 개방적 술식이나 관절경적 술식 모두 약간씩 상이한 결과들을 보고하고 있으나 술 후 출혈빈도 비교에서는 공통적으로 감소된다고 보고하였다. 특히 관절경적 활액막절제술을 시행한 연구 중 비교적 장

Table 2. Results of Previously Published Series of Open and Arthroscopic Ankle Synovectomy for Hemophilia

Author	Operative procedure	Patients (joints)	Age (yr)	Follow-up	x-ray stage		Bleeding rate per month		Range of motion (°)	
					Preoperative	Postoperative	Preoperative	Postoperative	Preoperative	Postoperative
Greene (1994) ¹⁸⁾	Open	5	9 (4-7)	5 yr (1-9 yr)	3.6 (2-6)	4.4 (3-5)	NA	NA	35 (25-45)	45 (30-60)
Plazanet et al. (1997) ²³⁾	Open	5	7.4 (6-9)	55 mo (4-5 yr)	Greene WB score		2 (0.9-3.6)	40% decreased in 4 patients	-	-
					-	4.5 (0-7)				
Pantopoulos et al. (2005) ²³⁾	Open+radiosynoviorrhesis	6	19 (8-27)	33.5 mo (10-53 mo)	5.6 (2-12)	No change	NA	NA	45 (40-50)	37.1 (10-50)
Patti and Mayo (1996) ²⁴⁾	Arthroscopic	9	12.3 (6.1-21.9)	33 mo (9-67 mo)	Petterson x-ray score		-	Decrease	48.4 (30-70)	-
					4.1 (2-6)	4.1				
Journeyake et al. (2003) ¹⁷⁾	Arthroscopic	11	11 (5.7-16.0)	4.9 yr (1-8 yr)	NA	NA	39.5	10.8*/1.66†	54.2 (46-68)	54.5 (43-70)
Dunn et al. (2004) ²⁰⁾	Arthroscopic	39	10 (4.2-18.4)	7.2 yr (2.3-10.7 yr)	-	6 aggravated 2 improved	-	-	60 (15-85)	52.5 (20-80)

Values are presented as median (range) or mean only. *1 year, 12 patients; †2 years, 11 patients. NA: not available.

기 추시된 Journeycake 등¹⁷⁾의 연구에서 관절 운동범위는 거의 변화가 없었으며 출혈빈도는 술 후 1-2년 사이에 확실한 감소를 보였고 특히 4-5년 이상 추시된 일부 환자에서 시간이 흐를수록 출혈빈도는 더 감소하는 것을 알 수 있었다. 저자들의 연구에서는 관절경적 활액막 제거술 후 혈액 응고 인자 투여량이나 방사선적인 분석은 술 전과 크게 다르지 않았다. 관절운동의 회복에 큰 영향을 미치지 못하였으나 출혈 횟수와 AOFAS 점수에서는 유의할 만한 향상된 결과를 얻어 앞서 연구된 논문들과 크게 다르지 아니하였다. 저자들은 술 후 공통적으로 추시되었던 18개월의 출혈빈도를 비교하였는데 수술 후 3개월 이내에 가장 출혈빈도가 적었으며 이후 출혈빈도가 다소 늘어났으나 각각 기간의 결과에 대한 유의성은 없었다. 단기간에는 출혈빈도가 감소된 채로 유지하였으나 추시 기간이 짧아 활액막 절제술 후 언제까지 감소된 출혈빈도가 유지되는지 혹은 어느 시기에 다시 출혈빈도가 얼마나 늘어나는지 알 수 없었다. 저자들은 이번 연구에서 운동범위의 호전을 위하여 골극이나 활막의 비후부분을 제거하였으나 좋은 결과를 얻지 못하였는데, 이러한 부분을 설명한 과거 연구들은 없으나 족관절에서 관절경적 술식으로 도달할 수 있는 병변의 범위가 작고 술 후 활액막의 섬유화 등에 의해 호전이 없을 것으로 추정하고 있다.

최근에는 방사선 동위원소를 이용한 활액막 제거술이 시술이 용이하고 80% 정도의 높은 성공률^{2,10,19,26-28)}을 보이고 있어 유용하나 아직 미성숙한 연골에서 어떠한 작용을 하는지 밝혀진 바 없다. 또한 과거 다른 관절에 관절경적 활액막 절제술을 시행한 연구에서 10년 이상 추시 시 관절의 운동범위가 점차 감소하고 임상적, 방사선적으로 질병이 진행됨을 보고한 경우^{14,15,18)}도 있어 질병의 경과에 어느 치료방법이 더 유용하다고 결론내리기는 힘들다. 비교적 초기의 혈우병성 관절염에서는 우선 방사선 동위원소나 화학적 활액막 제거술을 시행해볼 수 있으나 이후에 조절되지 않는 관절강 내 출혈이 있다면 수술을 통한 활액막 절제술이 필요하다.²⁹⁾ 그러므로 저자들은 관절경적 활액막 절제술이 개방적 술식에 비해 합병증이 적고, 수술의 성공률이 높으며, 방사선 동위원소에 대한 위험성과 접근성의 문제로 혈우병성 관절염 환자에서 하나의 좋은 치료 술식이라 생각한다.

결 론

이번 저자들의 연구는 최소 1년 8개월의 단기 추시 결과로 질병의 진행 정도 및 효과에 대해서는 평가하기 힘들다. 그러나 관절경적 활액막 제거술은 반복적인 출혈을 호소하는 혈우병성 족관절염 환자에서 합병증이 적고 접근하기 쉬운 술식으로 수술 후 출혈의 빈도 감소로 환자의 만족도 향상을 기대할 수 있는 유용한 치료 방법이다.

REFERENCES

1. Luck JV Jr, Silva M, Rodriguez-Merchan EC, Ghalambor N, Zahiri CA, Finn RS. Hemophilic arthropathy. *J Am Acad Orthop Surg*. 2004;12:234-45.
2. Rodriguez-Merchan EC. The haemophilic ankle. *Haemophilia*. 2006;12:337-44.
3. Acharya SS. Hemophilic joint disease: current perspective and potential future strategies. *Transfus Apher Sci*. 2008;38:49-55.
4. van Dijk K, Fischer K, van der Bom JG, Grobbee DE, van den Berg HM. Variability in clinical phenotype of severe haemophilia: the role of the first joint bleed. *Haemophilia*. 2005;11:438-43.
5. van den Berg HM, De Groot PH, Fischer K. Phenotypic heterogeneity in severe hemophilia. *J Thromb Haemost*. 2007;5 Suppl 1:151-6.
6. Iorio A, Marchesini E, Marcucci M, Stobart K, Chan AK. Clotting factor concentrates given to prevent bleeding and bleeding-related complications in people with hemophilia A or B. *Cochrane Database Syst Rev*. 2011;9:CD003429.
7. Fischer K, van der Bom JG, Mauser-Bunschoten EP, et al. The effects of postponing prophylactic treatment on long-term outcome in patients with severe hemophilia. *Blood*. 2002;99:2337-41.
8. Manco-Johnson MJ, Abshire TC, Shapiro AD, et al. Prophylaxis versus episodic treatment to prevent joint disease in boys with severe hemophilia. *N Engl J Med*. 2007;357:535-44.
9. Kang JO, Hong SE, Kim SG, Shin DO. The effect of radiation therapy on hemophilic arthropathy. *J Korean Soc Ther Radiol Oncol*. 2005;23:106-10.
10. Cho YJ, Kim KI, Chun YS, et al. Radioisotope synoviorthesis with Holmium-166-chitosan complex in haemophilic arthropathy. *Haemophilia*. 2010;16:640-6.
11. Kavakli K, Cogulu O, Aydogdu S, et al. Long-term evaluation of chromosomal breakages after radioisotope synovectomy for treatment of target joints in patients with haemophilia. *Haemophilia*. 2010;16:474-8.
12. Dunn AL, Manco-Johnson M, Busch MT, Balark KL, Abshire TC. Leukemia and P32 radionuclide synovectomy for hemophilic arthropathy. *J Thromb Haemost*. 2005;3:1541-2.
13. Yoon KH, Bae DK, Kim HS, Song SJ. Arthroscopic synovectomy in haemophilic arthropathy of the knee. *Int Orthop*. 2005;29:296-300.
14. Wiedel JD. Arthroscopic synovectomy of the knee in hemo-

- philia: 10-to-15 year followup. Clin Orthop Relat Res. 1996; 328:46-53.
15. Triantafyllou SJ, Hanks GA, Handal JA, Greer RB 3rd. Open and arthroscopic synovectomy in hemophilic arthropathy of the knee. Clin Orthop Relat Res. 1992;283:196-204.
 16. Rodríguez-Merchán EC, Magallón M, Galindo E, López-Cabarcos C. Hemophilic synovitis of the knee and the elbow. Clin Orthop Relat Res. 1997;343:47-53.
 17. Journeycake JM, Miller KL, Anderson AM, Buchanan GR, Finnegan M. Arthroscopic synovectomy in children and adolescents with hemophilia. J Pediatr Hematol Oncol. 2003;25:726-31.
 18. Greene WB. Synovectomy of the ankle for hemophilic arthropathy. J Bone Joint Surg Am. 1994;76:812-9.
 19. Rodriguez-Merchan EC. Ankle surgery in haemophilia with special emphasis on arthroscopic debridement. Haemophilia. 2008;14:913-9.
 20. Dunn AL, Busch MT, Wyly JB, Sullivan KM, Abshire TC. Arthroscopic synovectomy for hemophilic joint disease in a pediatric population. J Pediatr Orthop. 2004;24:414-26.
 21. Tamurian RM, Spencer EE, Wojtys EM. The role of arthroscopic synovectomy in the management of hemarthrosis in hemophilia patients: financial perspectives. Arthroscopy. 2002;18:789-94.
 22. Ribbans WJ, Phillips AM. Hemophilic ankle arthropathy. Clin Orthop Relat Res. 1996;328:39-45.
 23. Panotopoulos J, Hanslik-Schnabel B, Wanivenhaus A, Trieb K. Outcome of surgical concepts in haemophilic arthropathy of the hindfoot. Haemophilia. 2005;11:468-71.
 24. Patti JE, Mayo WE. Arthroscopic synovectomy for recurrent hemarthrosis of the ankle in hemophilia. Arthroscopy. 1996;12:652-6.
 25. Plazanet F, du Boullay C, Defaux F, et al. Open synovectomy for the prevention of recurrent hemarthrosis of the ankle in patients with hemophilia. A report of five cases with magnetic resonance imaging documentation. Rev Rhum Engl Ed. 1997; 64:166-71.
 26. Silva M, Luck JV Jr, Siegel ME. 32P chromic phosphate radio-synovectomy for chronic haemophilic synovitis. Haemophilia. 2001;7 Suppl 2:40-9.
 27. Rodriguez-Merchan EC. Methods to treat chronic haemophilic synovitis. Haemophilia. 2001;7:1-5.
 28. Mathew P, Talbut DC, Frogameni A, et al. Isotopic synovectomy with P-32 in paediatric patients with haemophilia. Haemophilia. 2000;6:547-55.
 29. Pasta G, Forsyth A, Merchan CR, et al. Orthopaedic management of haemophilia arthropathy of the ankle. Haemophilia. 2008;14 Suppl 3:170-6.

혈우병성 족관절염 환자에서 관절경적 활액막 제거술의 단기 추시 결과

이재훈 • 정덕환* • 김동희^{†,✉}

경희대학교 의과대학 강동경희대학교병원 정형외과학교실, *경희의료원 정형외과학교실,
[†]성균관대학교 의과대학 삼성창원병원 정형외과학교실

목적: 혈우병성 족관절염을 가진 환자에서 관절경적 활액막 제거술을 시행하여 수술 전, 후 임상적, 방사선적 결과를 비교 분석하였다.

대상 및 방법: 2006년부터 2008년까지 혈우병성 족관절염 환자로 관절경적 활액막 제거술을 시행받은 총 33명, 35예의 족관절을 대상으로 하였다. 추시 기간은 평균 2년 6개월로 술 전, 후의 족관절 운동범위, 출혈 빈도, 투여한 항혈우병 인자 양, 미국 족부족관절 학회 족관절 및 후족부 점수(미국족관절학회 점수), 주관적 평가 및 방사선학적 분류를 조사하였다.

결과: 관절 운동범위는 술 전 족배굴곡 평균 10.1°, 족저굴곡 평균 30.1°였으며 최종 추시 시 각각 11.3°, 28.2°였다($p>0.05$). 출혈 빈도는 술 전 평균 4.1회/개월, 술 후 0.6회/개월($p<0.05$), 투여한 항혈우병 인자 양은 술 전 평균 5,320 units/개월, 술 후 4,568 units/개월로 감소하였다($p>0.05$). 미국족관절학회 점수는 79.8점에서 최종 추시 시 90.0점으로 향상되었다.

결론: 관절경적 활액막 제거술은 반복적인 출혈을 호소하는 혈우병성 족관절염 환자에서 합병증이 적고 접근하기 쉬운 술식으로 술 후 출혈빈도 감소 및 환자의 만족도 향상을 기대할 수 있는 치료 방법이다.

색인단어: 족관절, 혈우병, 관절경적 활액막 제거술

접수일 2014년 3월 4일 수정일 2014년 7월 16일 게재확정일 2014년 8월 13일

[✉]책임저자 김동희

창원시 마산회원구 팔용로 158, 성균관대학교 의과대학 삼성창원병원 정형외과학교실

TEL 055-290-6030, FAX 055-290-6259, E-mail dhkim1149@gmail.com