

슬개골낭과 상부 슬개골을 침범한 무증상성 거대 통풍 결절: 약물 치료 후 경과관찰 6년 추시

김성태 • 이상엽[✉] • 김상재 • 김범수

제주한라병원 정형외과

Giant Tophi Involving Both Suprapatellar Pouches and Upper Poles of the Patellae: Treatment with Febuxostat and the 6 Years Follow-Up

Sung Tae Kim, M.D., Sang Yup Lee, M.D.[✉], Sang Jae Kim, M.D., and Bum Soo Kim, M.D.

Department of Orthopedic Surgery and Traumatology, Cheju Halla General Hospital, Jeju, Korea

Tophi is one of the clinical manifestations of gout. On the other hand, it does not draw the patient's attention when it is asymptomatic, which leads to delayed management. The current case is a typical example of delayed diagnosis and management. The authors' preferred management of tophi was medical not surgical, even though the hitherto therapeutic issue has been conservative versus surgical. The authors chose conservative treatment in the osteolytic lesion resulting from huge tophi in the patella, and the report the results of 6 years follow-up.

Key words: patella, giant gout tophi, osteolysis, medication

통풍성 관절염은 다양한 원인에 의해 고 요산혈증이 유발되고 이로 인한 염증성 관절염을 일으키는 질환이다. 만성 통풍성 관절염에서는 통풍 결절이 나타날 수 있고 이러한 결절이 골 용해를 일으키거나 주위 구조물을 압박하여 이차적인 문제를 일으킨다면 수술의 적응증으로 간주되어 왔다. 특히 슬관절에 발생한 통풍 결절의 경우 슬와건염, 봉와직염, 양성 혹은 악성 종양 등의 질환을 감별해야만 한다. 슬개골¹⁾ 및 슬와²⁾에 생긴 통풍 결절은 국내에 각각 1예 보고된 바 있으며, 이 중 슬개골에 생긴 1예에서는 골 용해 소견이 관찰되어 수술적 치료를 시도하여 좋은 결과를 얻었다고 보고하였다. 그러나 본 환자의 경우 환자가 느끼는 증상이 심하지 않아 환자 스스로 수술의 필요성을 느끼지 못했던

이유로 부득이하게 약물 투여를 통한 치료를 시작하였으며 6년 후 결절의 소실 및 골유합 소견이 관찰되어 본 증례에 대하여 보고하는 바이다.

증례보고

63세 남자 환자로 첫 내원 5년 전부터 양측 무릎의 슬개골 상부에 종괴가 촉진되어 외래로 내원하였다. 하루 한 갑의 흡연력과 일 주일에 소주 2병의 음주력이 있었으며 다른 알려진 지병은 없었다. 환자의 직업은 농부였으며 8년 전부터 우측 슬관절 부위에 간헐적 통증을 느꼈고, 5년 전부터 작은 종괴가 촉진되었으며, 이후 종괴 크기가 지속적으로 증가하고 통증의 주기가 짧아졌다고 하였다.

신체 검사상 우측 슬개골 상부에서 약 5×5 cm 크기의 종괴가 촉진되었고 가벼운 압통이 있었다(Fig. 1A). 종괴는 단단하고 고정되어 있었다. 우측의 슬관절의 운동 범위는 0°에서 160°였으며, 근력은 5등급으로 측정되었다. 방사선적 소견상 슬개골 상부의

Received November 2, 2017 Revised December 26, 2017

Accepted February 6, 2018

[✉]Correspondence to: Sang Yup Lee, M.D.

Department of Orthopedic Surgery and Traumatology, Cheju Halla General Hospital, 65 Doryeong-ro, Jeju 63127, Korea

TEL: +82-64-740-5000 FAX: +82-64-743-3110 E-mail: hallaos7777@naver.com

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8430-5992>

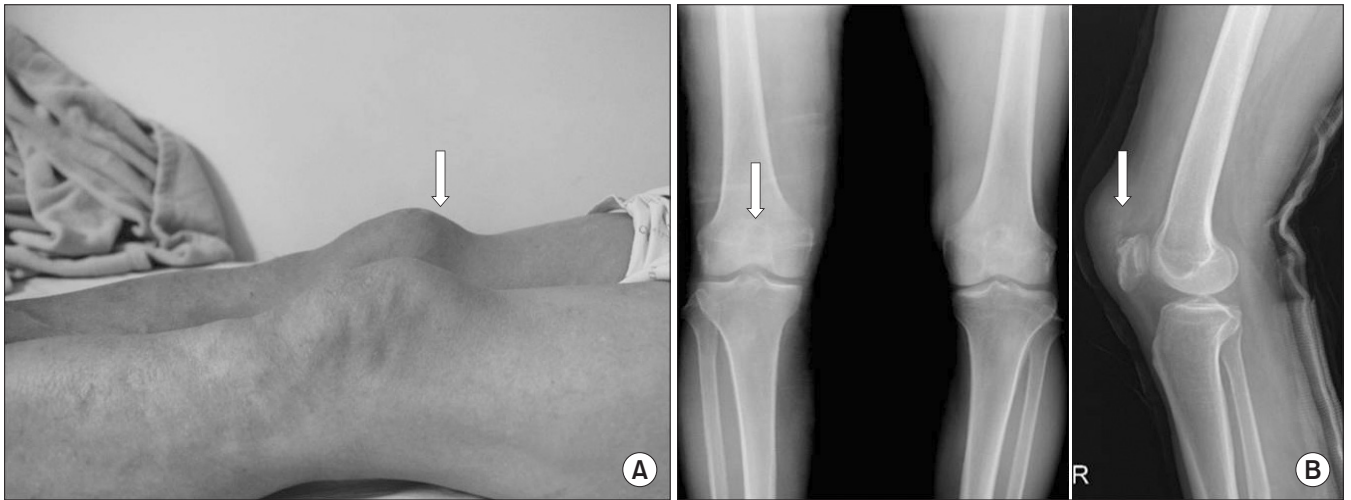


Figure 1. (A) Gross findings of both knees shows the protruded upper pole of the right patella by huge tophi (arrow). (B) Simple anteroposterior radiograph of both knees shows irregularly defined ring-shaped radiopaque shadows in the upper pole of both patellae. Lateral radiograph shows the swollen soft tissue shadows with calcific spots in the upper poles of the right patella and eroded anterior cortices of the patella (arrows).

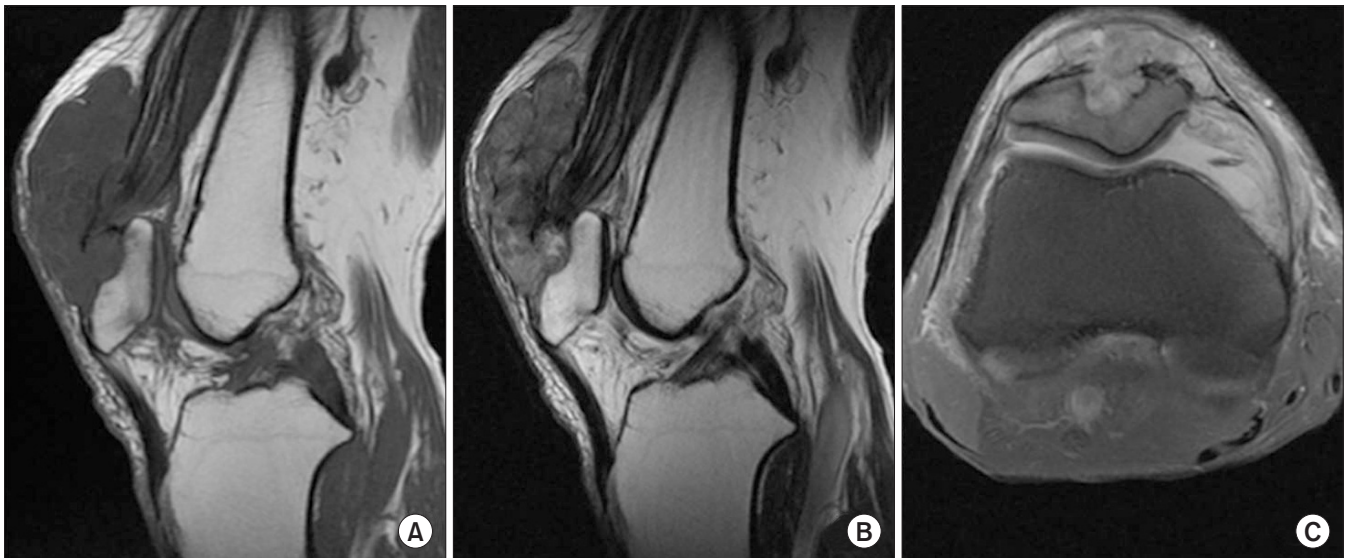


Figure 2. Sagittal and tangential views of a magnetic resonance imaging of the right knee showing a hypo-intense (T1) (A), hyper-intense (T2) (B), large mass in the supra-patellar pouches and upper poles of the patellae, with osteolytic lesion (C) in the superior patella region.

골 용해 소견이 동반된 연부조직의 종괴가 관찰되었고, 양측 슬개골 전상부에 불규칙한 석회화 소견이 보였다(Fig. 1B). 좌측 슬관절에는 2×3 cm 크기의 작은 종괴가 축지되었고 운동 범위는 정상이었다. 외상의 과거력은 없었고 발열, 발적, 체중 감소를 비롯한 다른 전신적 질환을 의심할 만한 증상은 없었다. 내원 당시 검사 소견상 혈중 요산치 8.2 mg/dl, 크레아티닌 1.33 mg/dl, 적혈구 침강속도(erythrocyte sedimentation rate)와 C 반응성 단백(c-reactive protein)은 각각 68 mm/hr, 4.89 mg/dl, 백혈구 수는 8,300/μl 였다. 자기공명영상 검사(magnetic resonance imaging, MRI)상 T1

에서 저 강도 신호, T2에서 고 강도 신호의 5.1×6.7×2.3 cm 크기의 종괴가 보였고 상부 슬개골의 주변부에 골 미란이 관찰되었다(Fig. 2).

먼저 양성, 악성 종양의 감별이 필요하다 판단되어 입원 후 세포진단을 위한 침흡입생검을 실시하였다. 흡인물은 백색의 분필가루 양상이었다(Fig. 3). 편광 현미경상 이중 굴절 음영의 바늘모양 결정이 관찰되었다(Fig. 4). 염색 검사에서 세포의 악성 소견은 없었고, 대식구, 림프구, 거대 세포에 의해 둘러싸여 있는 통풍 결정이 관찰되었다(Fig. 5).

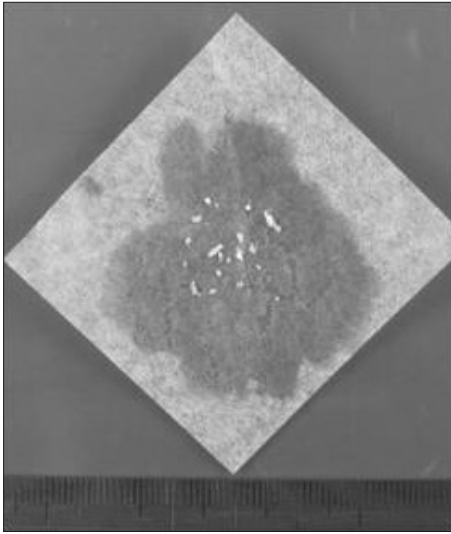


Figure 3. Needle biopsy showing white chalk-like material.

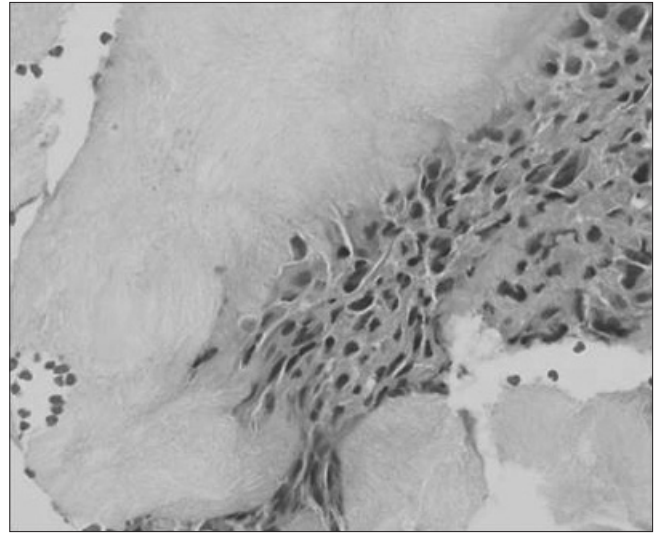


Figure 5. Tophi crystals are surrounded by inflammatory cells including macrophages, lymphocytes, foreign body giant cells (H&E, ×400).



Figure 4. Polarizing microscopy image (×400) showing a birefringent needle shaped urate crystal (arrows).

만성 통풍 및 통풍 결절로 진단되었고 골 용해 소견이 동반되어 수술적 치료의 적응증에 해당하였으나 환자는 증상이 견딜 만하고 수술적 치료는 가장 최후의 수단으로 남겨두기를 원하였다. 결국 통풍 결절 침착을 조절하고 혈중 요산 수치 조절을 위해 febuxostat (80 mg/T 0.5T quaque die [Qd])를 투약하였고 급성 증상 발생 시 비스테로이드성 항염증제(nonsteroidal anti-inflammatory drugs)와 colchicines의 약물을 투여를 하면서 지속적으로 경과 관찰하기로 하였다. 퇴원하여 외래 추시 1주일째 방사선 사진을 촬영한 결과(Fig. 6A), 슬개골 부위 불편감은 완전히 사라졌으며 우측 슬관절의 능동 운동이 가능하였다.

환자는 추시 6년간 febuxostat (80 mg/T 0.5T Qd)를 휴지기 없이 지속적으로 복용하였다. 외래 추시 2년 후, 골 용해 병변이 남

아 있었고(Fig. 6B), 육안상 결절의 크기 증가는 관찰되지 않았다. 추시 4년째, 골 용해 병변이 사라지고 골유합이 나타났으며(Fig. 6C), 결절의 크기가 육안상 감소되었다. 추시 6년째 결절이 외관상 보이지 않았으며 방사선 사진상 슬개골 상부에 신생골 형성이 관찰되었다(Fig. 6D). 마지막 외래 추시상 슬관절의 신전 각도는 5도였었고 10도의 신전 결손(extension lag)이 있었으나 일상생활에는 지장이 없다고 하였다.

고 찰

통풍은 활액막과 관절 주변 조직에 요산 일 나트륨 결정(monosodium urate crystal)이 침착되어 발생하는 전신성, 염증성 관절염이다. 급성 관절염의 경우 단관절성 염증성 관절염 양상으로 나타나고 만성으로 진행하면 통풍 결절이 발생할 수 있는데, 주로 골간이나 관절 주위에 발생한다. 적절한 치료를 받지 않으면 골 파괴를 초래하여 관절염을 일으킨다.

Gentili³⁾에 따르면 통풍의 전형적인 단순 방사선적 소견은 경계가 명확한, 구멍 뚫린 양상(punched out), 상대적으로 관절 공간은 잘 보존되어 있으면서 돌출된 가장자리에 나타나는 관절 주변 미란(periarthritic erosion with overhanging edge), 일부 미세알 결절의 석회와 같은 소견이 보인다고 하였다. Ehara 등⁴⁾의 보고에 따르면 단순 방사선 영상에서 슬개골에 골 용해 소견을 보이는 22예를 분석한 결과 5예의 양성 종양(연골모세포종 3예, 동맥류성 골 낭종 1예, 유골 골종 1예), 4예의 악성 종양(악성 거대세포종 1예, 혈관육종 1예, 전이성암종 1예, 활액막 육종 1예), 13예의 비 종양성 질환(부갑상선기능 항진증의 갈색종양 2예, 화농성 골수염 2예, 박리성 골연골염 2예, 류마티스 관절염 1예, 파제트 병 1예,



Figure 6. Radiographs at one week later (A), 2 years later (B), 4 years later (C), 6 years later (D). After 4 years, the tophi size decreased and the osteolytic lesion was filled with new bone (arrows).

후방 결손(dorsal defect) 5예가 있었다. 이와 같이 슬개골의 골 용해 소견이 보이는 경우 양성, 악성 종양이 보고되는 바, 본 증례 역시 이에 대한 감별이 필요하였다.

본 증례는 증상이 우측 일측성으로 발생하였으나 좌측에도 작게 축지되는 병변이 있어 양측성으로 발생하였다는 점, 크기의 증가가 있었으나 작아진 적이 있었다는 점, 평소 술과 육류를 즐겨하였다는 점, 시행한 혈액 검사상 요산 수치가 증가했다는 점을 종합하여 종양성 질환보다는 대사성 질환을 먼저 의심하게 되었다. 그러나 이러한 근거가 종양성 질환을 완전히 배제할 수는 없어 종양 치료의 원칙을 따라 흡인과 같은 침습적 검사 대신 먼저 MRI를 촬영하였다. 통풍 결절은 MRI상 T1 영상에서 근육과 거의 같은 강도, T2에서 고 강도와 저 강도 신호가 혼합된 강도를 보이고 있으며, 조영제 사용 시 신호 강도가 증가하지 않는 것으로 보고되고 있는데⁹⁾ 이는 본 증례와 합당하였다. 흡인하여 편광 현미경 검사상 이중 굴절 음영의 바늘모양 결절이 관찰되어 통풍 결절로 확진하였다. 본 증례와 같이 종양성 질환의 감별이 필요

하다면 조직검사를 시행해야 한다. 종양과 감별을 시도한 슬개골에 생긴 통풍 결절이 국내에서 1예 보고된 바 있다.¹⁾

일부 증례보고에서는⁶⁾ 통풍 진단 후 영상에서 활동성 골 흡수로 인한 골 용해성 병변이 보이면 요산 수치만을 조절한다고 하여도 증상의 호전을 기대하기 어려울 것으로 판단하여 수술적 치료를 시행하였다. 또한 Price 등⁷⁾은 슬개골에 발생한 통풍 결절이 병절 골절을 유발할 수 있음을 보고하였다. 본 환자 역시 17×10×16 mm 크기의 골 용해 소견이 관찰되어 통풍 결절 절제 후 골 이식 수술을 계획하였으나 환자의 거부로 부득이하게 경과관찰을 시행하였다. 통풍은 비스테로이드성 소염제 및 콜친 투여 후 2일째 호전되었고 환자는 퇴원하였다. 이후 외래 추시상 육안상 결절의 크기는 2년까지 감소가 없었으나 4년째부터 우측 통풍 결절의 크기 감소가 두드러지기 시작하였고 방사선 추시상 골 용해 병변이 감소하였다. 6년 추시에서는 슬개골 주위 신생골의 재형성이 이루어졌으며, 골 용해 병변의 소실을 확인되었다.

피부 괴사, 감염, 인대 및 관절운동 장애, 신경 압박, 관절 파괴

등이 있는 경우에는 수술적 치료를 적극적으로 고려하는 것이 좋겠으나 이러한 소견이 없으면서 환자가 약물 치료에 협조적이고 장기 추시가 가능하다면 초기 진단 시 골 용해를 보이는 거대 통풍 결절이라고 할지라도 약물 요법을 하나의 치료 방법으로 선택할 수도 있으리라 판단된다. Febuxostat는 혈중 요산 수치를 조절하고 통풍 결절의 크기를 감소시키는 데 유용함이 입증되어 있으며⁸⁾ 본 증례의 경우 휴지기 없이 febuxostat를 투여하였고 그 결과 통풍 결절이 흡수가 되었다. 본 저자들이 문헌고찰한 바로는 통풍 결절이 약물 치료 없이 자연 흡수된다는 보고는 없는 것으로 확인되어 본 증례의 통풍 결절 소실은 약물 효과에 따른 결과인 것으로 판단된다. 또한 통풍 결절이 동반된 창상은 회복 지연이 문제가 되고 있어⁹⁾ 언제나 수술적 접근만이 이상적이라 할 수는 없을 것이다. Febuxostat의 부작용으로 간효소 수치 상승, 고지혈증, 크레아티닌 상승, 위장계 이상 등이 보고되고 있으나 대부분 경미하고 심각한 수준의 이상을 일으키지는 않는 것으로 보고되고 있다.¹⁰⁾

골 용해를 동반한 통풍 결절의 치료는 약제를 통해 지속적으로 요산 수치를 정상으로 조절해야 하고 통풍 결절을 제거하며 골 용해를 중지시키고 골 생성을 유도하여 유합을 이룰 수 있어야 한다. 본 저자들은 슬개골에 발생한 골 용해를 동반한 거대 통풍 결절 환자에서 약물 치료로 장기 추시한 결과 증상의 호전을 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

CONFLICTS OF INTEREST

The authors have nothing to disclose.

REFERENCES

1. Kim MK, Moon KH, Lee TJ, Kim L, Lee JS. Gout tophi in the bipartite patella. *J Korean Orthop Assoc.* 2008;43:139-42.
2. Kim JO, An KY, Park BJ, Min WB. Surgical treatment of gouty tophi in bilateral popliteal cysts. *J Korean Orthop Assoc.* 2016;51:178-82.
3. Gentili A. The advanced imaging of gouty tophi. *Curr Rheumatol Rep.* 2006;8:231-5.
4. Ehara S, Khurana JS, Kattapuram SV, Rosenberg AE, el-Khoury GY, Rosenthal DI. Osteolytic lesions of the patella. *AJR Am J Roentgenol.* 1989;153:103-6.
5. Gerster JC, Landry M, Dufresne L, Meuwly JY. Imaging of tophaceous gout: computed tomography provides specific images compared with magnetic resonance imaging and ultrasonography. *Ann Rheum Dis.* 2002;61:52-4.
6. Reber P, Crevoisier X, Noesberger B. Unusual localisation of tophaceous gout. A report of four cases and review of the literature. *Arch Orthop Trauma Surg.* 1996;115:297-9.
7. Price MD, Padera RF, Harris MB, Vrahas MS. Case reports: pathologic fracture of the patella from a gouty tophus. *Clin Orthop Relat Res.* 2006;445:250-3.
8. Becker MA, Schumacher HR Jr, Wortmann RL, et al. Febuxostat compared with allopurinol in patients with hyperuricemia and gout. *N Engl J Med.* 2005;353:2450-61.
9. Kasper IR, Juriga MD, Giurini JM, Shmerling RH. Treatment of tophaceous gout: When medication is not enough. *Semin Arthritis Rheum.* 2016;45:669-74.
10. Huang X, Du H, Gu J, et al. An allopurinol-controlled, multicenter, randomized, double-blind, parallel between-group, comparative study of febuxostat in Chinese patients with gout and hyperuricemia. *Int J Rheum Dis.* 2014;17:679-86.

슬개골낭과 상부 슬개골을 침범한 무증상성 거대 통풍 결절: 약물 치료 후 경과관찰 6년 추시

김성태 • 이상엽[✉] • 김상재 • 김범수

제주한라병원 정형외과

통풍 결절(tophi)은 통풍의 한 가지 합병증이지만 통증을 유발치 않을 시 진단이나 치료가 지연되기 쉽다. 본 증례는 수년간 거대 결절이 양측 슬개골낭과 슬개골 상부에 있음에도 활동에 별 지장이 없어 치료가 지연된 증례였는데, 환자가 치료의 필요성을 전혀 인식하지 못하여 수술적 치료를 거부하였고 불가피하게 약물 투여 후 경과관찰을 시행하였다. 치료는 상황에 따라 내과적 약물 투여 혹은 외과적 절제술을 시행하게 되는데, 저자들은 일차적 통풍이라 판단하고 수술적 절제 대신 고식적 요법을 택하여 치료 후 6년간 추시를 보고하는 바이다.

색인단어: 슬개골, 거대 통풍 결절, 골 용해, 약물 치료

접수일 2017년 11월 2일 수정일 2017년 12월 26일 게재확정일 2018년 2월 6일

[✉]책임저자 이상엽

63127, 제주시 도령로 65, 제주한라병원 정형외과

TEL 064-740-5000, FAX 064-743-3110, E-mail hallaos7777@naver.com, ORCID <https://orcid.org/0000-0001-8430-5992>