

## 좌측 고관절에 발생한 미만형 색소응모결절성 활액막염

### -1례 보고-

한림대학 강동성심병원 정형외과학교실 · 한림대학 병리학교실\*

박인현 · 김동헌 · 박명률 · 나도영 · 강신광\*

=Abstract=

### Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis of the Hip Joint -One Case Report-

In Heon Park, M.D., Dong Heon Kim, M.D., Myung Ryool Park, M.D.,  
Do Young Na, M.D. and Shin Kwang Kang, M.D.\*

Department of Orthopedic Surgery, Kang Dong Sacred Hospital,  
Hallym College, Seoul, Korea

\*Department of Pathology, Hallym College, Seoul, Korea

In 1941, Jaffe and coworkers studied a lesion with histologic appearance of fibrous stroma, pigmented deposition and histiocytic infiltration as well as giant cell, for which they named pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis.

Thereafter many authors have discussed etiology, clinical and radiological features, pathology and treatment regarding the disease.

Recently we experienced a case of pigmented villonodular synovitis involving an hip joint which was treated by synovectomy and total hip replacement with good result.

**Key Words :** Pigmented villonodular synovitis, Hip.

## 서 론

Pigmented villonodular synovitis는 1941년 Jaffe등<sup>1)</sup>에 의해 명명되었으며 그후 많은 저자들에 의해 그 원인 병리 및 진단과 치료에 대해서 논의되어왔다. 관절에 발생한 pigmented villonodular synovitis는 여러 저자에 의해 보고된 바 있으나 슬관절의 경우가 대부분을 차지하였고 고관절의 예는 비교적 희유하였다. 본 교실에서는 좌측 고관절에서 골침범을 동반한 pigmented villonodular synovitis 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 더불어 보고하는 바이다.

## 증 례

환 자 : 이○숙, 여자, 31세.

주 소 : 좌측 고관절부위의 동통과 파행.

병 력 : 내원 1년 3개월전부터 뚜렷한 이유가 없어 좌측 고관절부위에 경미한 동통이 발생하여 당시 타 병원에서 결핵성 고관절염의 진단을 받고 약 1년간 항결핵약을 복용하면서 치료를 받던 중 내원 약 1개월 전부터 동통이 심해지고 파행이 병발, 본원을 내원함.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없음.

이학적 소견 : 내원당시 발육상태는 양호했고 좌측 고관절부위의 압통이 있었으나 종창은 촉진되지 않았다. 좌측 고관절의 운동범위는 굴곡 90도 외전 30도 내회전 및 외회전은 각기 20도였다.

검사 소견 : 일반혈액검사, 요검사 및 혈침검사 등은 정상이었고 CRP, RA factor는 음성이었으며 혈중 calcium, phosphorus, alkaline phosphatase, cholesterol등도 정상이었다.

**Fig. 1-A.** X-ray of the left hip shows multiple cysts and destructive changes of joint.

**Fig. 2-A.** Yellowish brown colored synovium penetrates the joint capsule.

**Fig. 1-B.** Increased uptake of  $Tc^{99m}$ -MDP on the left hip joint.

**방사선 소견 :** 좌측 고관절의 전후방 및 측면 사진상 비구 대퇴골두 및 경부에 비교적 경화성 변연에 둘러싸인 낭종이 다발성으로 나타났고 고관절 관절간격이 좁아졌으며 골파괴를 동반하였다. 방사성동위원소 검사상 좌측 고관절부위에 비정상적으로 흡수가 증가된 양상을 보였다 (Fig. 1-A, B).

**수술 및 수술소견 :** 전신마취하에 측후방도달

**Fig. 2-B.** Excised synovium(top right) and the femoral head. The articular cartilage and subchondral bone of the femoral head are destructive.

법으로 고관절을 후방탈구 시킨후 활액막절제술 및 고관절전치환술을 시행하였다. 소견으로서는 관절낭이 팽창되어 있었으며 비후된 황갈색의 활액막 일부가 관절낭을 뚫고 돌출되어 있었고 관절낭 절개시 암갈색의 관절액이 유출되었고 황갈색의 활액막이 비구 대퇴골두 및 경부에 침윤되어 있는것이 관찰되었다(Fig. 2-A, B).

**조직학적 소견 :** 활액막의 용모성증식이 보였고 foam cell 다핵거대세포 및 색소를 내포한 원형세포 등이 관찰되었다(Fig. 3-A, B, C, D).

**수술후 경과 :** 술후 동통이 감소된 즉시 대퇴사두근 긴장운동을 시행하였고 약 4주후 목발을 이용한 부분체중부하보행을 허용함과 동시에 고관절능동운동을 시작하였으며 술후 2개월부터 전체중부하보행을 허용하였다. 술후 1년 3개월에 시행한 이학적 검사상 고관절 운동범위는 굴곡 110도 외전 45도 내회전 및 외회전은 각기

**Fig. 3-A.** Proliferating villi with infiltration of round cells ( $\times 100$ ).

**Fig. 3-B.** Round cells with multinucleated giant cells. Some round cells have pigment in their cytoplasm ( $\times 200$ ).

**Fig. 3-C.** Collection of foamy cells(right-side) admixed with round cells(leftside) ( $\times 400$ ).

**Fig. 3-D.** Lesion penetrating the bone. Articular cartilage with subchondral bone is seen on rightside ( $\times 40$ ).

40도였고 좌측 고관절의 동통과 파행은 소실되었으며 방사선 검사상 재발의 소견은 없었다(Fig. 4).

## 고 찰

색소용모결절성 활액막염은 1865년 Simon<sup>20)</sup>이 슬관절에 발생한 병변을 "Xanthoma of synovial membrane"이라고 보고한 이후 여러 저자들에 의해 Xanthogranuloma, Giant cell tumor, Myeloplaxoma, Villous arthritis등등 다양한 명칭으로 불리워오다가 1941년 Jaffe등<sup>15)</sup>에 의해 pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis로 명명되었다. 본 질환의 원인에 대해 Desanto등<sup>10)</sup> Galloway등<sup>12)</sup>은 지질대사의 장애라 하였고 Hirohata등<sup>14)</sup>은 지질대사의 이상으로 인해 이차적으로 국소조직의 염증을 유발한다 하였다. Jaffe등<sup>15)</sup>은 실험적으로 관

**Fig. 4.** Post-op fifteen month X-ray shows no evidence of further destructive changes or cysts.

절내에 cholesterol 혹은 그 화합물 등을 주입해도 병변이 유발되지 않음으로 미루워 cholesterol 및 그와 유사한 지질의 조직내 축적은 염

증에 대한 반응이라 하였다. Fisk등<sup>11)</sup>은 활액막의 외상으로 활액막염이 유발되어 이 질환으로 이행된다 하였고 Young등<sup>22)</sup>은 개의 슬관절에 혈액을 반복주입하여 실험적으로 이 질환에 유사한 병변을 발생시켜 외상과의 연관성을 주장하였다. Stewart<sup>21)</sup>, Geschickter등<sup>13)</sup>은 neoplasm이라 하였고 Wright<sup>23)</sup>는 악성병변의 가능성이 잠재한다 하였으나 Lichtenstein<sup>18)</sup>은 악성병변의 예는 없었다고 보고하였다. 근래에 Rao등<sup>19)</sup>은 섬유아세포나 섬유조직구의 종양성증식이라 주장하고 있으나 아직은 Jaffe등<sup>15)</sup>이 제시한 비세균성염증이란 견해가 지배적이다. 본 질환의 분류를 Jaffe는 활액막염, 건초염, 색소용모결절성 활액낭염으로 구분하고 활액막염과 건초염을 다시 미만형과 국소결절형으로 세분했다. 발생빈도는 국소결절형이 더 많고 호발부위는 관절의 경우 슬관절이 대부분을 차지한다. Jaffe에 의하면 슬관절이 고관절에 비해 10~15배 더 많이 하였고 다른 저자<sup>8, 16, 20)</sup>도 슬관절에 호발함을 보고하였다. 고관절의 경우 국내에서도 1례가 보고된 바 있다<sup>2)</sup>. 연령 및 성별분포를 보면 Jaffe는 청장년층에서 Byers등<sup>8)</sup>은 30대에서 호발한다 하였으며 평균호발연령을 Wright<sup>23)</sup>는 38.5세 Rao등<sup>19)</sup>은 41.5세로 보고했고 본 증례의 경우는 31세였다. 성별분포의 경우 Jaffe에 의하면 미만형은 남자에서, 건초염은 여자에서, 국소결절형은 남녀 비슷하게 호발한다 하였고 본 증례는 여자였다. 한편 보고된 고관절의 경우 주로 청장년층에서 호발하나 성별빈도엔 별다른 상관관계가 없었다. 임상증상은 초기엔 이완된 관절부위의 경미한 동통과 아울러 수년후 활액막이 증대되면서 관절강직과 함께 종창이 촉진되기도 한다. 본 증례의 경우 종창은 촉진되지 않았다. 방사선 소견도 초기엔 이상을 발견하지 못하는 수가 많으며 Lewis<sup>17)</sup>에 의하면 주로 한 관절에 한해 침범되고 활액막이 팽대되며 관절을 이루는 골 자체엔 변화가 없고 관절연골이 잘 보존된다 하였으나 Danzig<sup>9)</sup>에 의하면 고관절의 경우 다른 관절에 비해 초기에 비구나 대퇴골두에 낭종성 변화를 초래하며 점차 진행되면서 관절간격이 좁아지고 대퇴골두 및 경부에까지 골과괴를 가져올 수 있다고 하였다. 본 증례에서도 비구 대퇴골두 및 경부에 다발성낭종 및 골과괴를 보였다. 조직학적 소견으로는 미만형은 synovial cell과 결체조직이 망상으로 엉겨 lining된 용모들이 다수 관찰되며 지질을 포함하는 세포

와 다핵거대세포가 많이 출현한다. 국소결절형은 부위에 따라 원형세포가 산재되어 있거나 밀집되어 있고 약간의 교원화를 항상 볼 수 있다. 본 증례에서도 전형적인 미만형의 소견을 보였다. 진단은 병력 임상소견 및 방사선 소견, 조직소견 등으로 이루어지고 관절천자시 암갈색의 관절액 소견은 진단적 가치가 있다고 하였다. 감별진단으로는 골관절염, 류마티스성 관절염, 결핵성 관절염, 활액막 골연골종, 통풍 등이 있으며 특히 국내의 경우 결핵성 고관절염과의 감별이 중요하다 하겠다. 본 질환의 치료는 보존요법, 수술요법 및 방사선 요법 등으로 대별할 수 있고 고관절의 경우 활액막절제술, 관절고정술, 방사선 조사 및 관절치환술 등이 보고되어 있으며 Johansson<sup>16)</sup>에 의하면 고관절이나 견관절의 경우 수술시 관절파괴의 양상이 보이면 반드시 광범위한 활액막 절제술과 아울러 관절치환술을 고려해야 한다고 하나 아직까지는 예후가 부정확하며 확정된 치료법이 알려져 있지 않다. 본 증례에서는 활액막 절제술과 고관절전치환술을 병용하였으며 약 1년 3개월간의 추시기간 동안 증상의 재발이 없었다.

## 결 론

저자들은 비교적 희유하게 고관절에서 발생한 색소용모결절성 활액막염 1례를 활액막절제술과 고관절전치환술로 치험하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCES

- 1) 강문기 · 장준섭 : *Pigmented Villonodular Synovitis* 4례보고. 대한정형외과학회지, 제 13권 3호, 1978.
- 2) 강창수 · 편영식 · 이충길 · 박노문 : 고관절에 발생한 *Pigmented Villonodular Synovitis* 1례. 대한정형외과학회지, 제14권 3호, 1979.
- 3) 김광희 · 이희수 · 손승원 : *Pigmented Villonodular Synovitis* 1례. 대한정형외과학회잡지, 제5권 2호, 1970.
- 4) 김수정 · 박장원 : 슬부 *Pigmented Villonodular Synovitis* 3례보고. 대한정형외과학회잡지, 제3권 2호, 1968.
- 5) 김익동 · 이수영 · 인주철 · 박병철 : *Bursa anserina*에 발생한 *pigmented villonodular*

- bursitis* 1례. 대한정형외과학회잡지, 제11권 3호, 1976.
- 6) 김탁희 · 오태정 · 김기용 : *Pigmented Villonodular Synovitis* 대한정형외과학회잡지, 제7권 1호, 1972.
  - 7) 함동수 · 이재무 : 착색성 용모 결절성 활액막염 2례. 대한외과학회잡지, 제7권 11호, 1965.
  - 8) Byers, P.D., Cotton, R.E. and Deacon, P. W. : *The diagnosis and treatment of pigmented villonodular synovitis. J. Bone and Joint Surg., 50-B : 290, 1968.*
  - 9) Danzig, L.A., Gershuni, D.H. and Resnick, D. : *Diagnosis and Treatment of Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis of the Hip. Clin. Orthop., 168 : 42-47, 1982.*
  - 10) De Santo, D.A. and Wilson, P.D. : *Xanthomatous tumor of joints. J. Bone and Joint Surg., 21 : 531, 1939.*
  - 11) Fisk, G.R. : *Hyperplasia and metaplasia in synovial membrane. Annals of the Royal College of Surgeons of England, 11 : 157, 1952.*
  - 12) Galloway, J.D.S., Broders, A.C. and Ghorrmley, R.K. : *Xanthoma of tendon sheath and synovial membranes. Arch. of Surg., 40 : 485, 1940.*
  - 13) Geschickter, C.F. and Copland, M.D. : *Tumors of Bone. 3rd ed. Philadelphia, J. B. Lippincott Co., pp. 686, 706, 1949.*
  - 14) Hirohata, K. : *Light microscopic and electron microscopic studies of individual cells in pigmented villonodular synovitis and bursitis(Jaffe). Kobe, J. Med. Sci., 14 : 251, 1968.*
  - 15) Jaffe, H.L., Lichtenstein, L. and Sutro, C.J. : *Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis. Arch. of pathology, 31 : 731, 1941.*
  - 16) Johansson, J.E., Ajjoub, S., Coughlin, L.P., Wener, J.A. and Cruess, R.L. : *Pigmented Villonodular Synovitis of Joints. Clin. Orthop., 163 : 159-166, 1982.*
  - 17) Lewis, R.W. : *Roentgen diagnosis of pigmented villonodular synovitis and Synovial Sarcoma of the knee joint, A preliminary report. Radiology, 49 : 26, 1947.*
  - 18) Lichtenstein, L. : *Tumors of synovial joints, bursae and tendon sheath. Cancer, 8 : 816, 1955.*
  - 19) Rao, A.S. and Vigorita, V.J. : *Pigmented Villonodular Synovitis : A review of 81 cases. J. Bone and Joint Surg., 66A : 76, 1984.*
  - 20) Simon, G. : *Extirpation einer sehr grosser, mit dickem stiele angewachsenen kniege-lenkmaus mit glücklichem erfolge. Arch. F. Klin. Clin., 6 : 573-576, 1864~65.*
  - 21) Stewart, M.J. : *Benign giant-cell synovio-ma and its relation to "exanthoma". J. Bone and Joint Surg., 30B : 522, 1948.*
  - 22) Young, J.M. and Hudacek, A.C. : *Experimental prduction of pigmented villono-dular synovitis in dog. Am. J. of Patho-logy, 30 : 779, 1954.*
  - 23) Wright, C.J.E. : *Benign giant-cell synovio-ma : An investigation of 85 cases. Br. J. Surg., 38 : 257, 1951.*