

우측 견관절에 발생한 결절형 색소 용모 결절성 활액막염 -1례 보고-

한림대학교 의과대학 춘천성심병원 정형외과학교실

이기병 · 이진영 · 신득순

=Abstract=

Nodular Pigmented Villonodular Synovitis of the Right Shoulder Joint -One Case Report-

Kee Byoung Lee, M.D., Jin Young Lee, M.D. and Deuk Sun Shin, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Chun-Cheon Sacred Hospital, Hallym University,
Chun-Cheon, 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.

Almost all, this disease is monoarticular and knee joint is most common site.

We experienced a case of localized pigmented villonodular synovitis involving an shoulder joint which was treated by local excision and obtained good result.

Key Words : Pigmented villonodular synovitis, Shoulder.

서 론

Pigmented villonodular synovitis는 1941년 Jaffe등²⁴⁾에 의해 최초로 명명되었으며 그후 많은 저자들에 의해 원인, 병리, 진단 및 치료에 대해 논의되어 왔으나 현재까지 정확한 원인이 밝혀져 있지 않고 치료에 대해서도 논란이 대상이 되고 있다.

대부분의 예에서 한개의 관절만을 침범하며 슬관절에서 가장 높은 빈도를 보이는 것으로 보고되고 있다.^{9, 10, 15, 16, 20, 25, 27, 30, 31, 35)}

견관절에 발생한 예는 1968년 Byers등¹⁰⁾에 의해 미만형 1례가 보고되어 있으나, 결절형은 아직 보고된 바가 없다.

본 교실에서는 우측 견관절에서 발생한 결절형의 Pigmented villonodular synovitis 1례를 치험하여 단순 절제술 후 18개월간 추시하여 재

발없이 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자 : 서 ○ 자, 여자, 40세

주 소 : 우측 견관절부 동통

병 력 : 내원 2년전부터 우측 견관절부 동통 및 서서히 증대되는 종류가 촉진되어 본원을 내원 함.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없음

이학적 소견 : 우측 견관절 전상부 및 직하부에 압통이 없는 2개의 종류가 촉진 되었다. 2개 모두 계란 크기 정도 였으며, 주위 조직과 경계가 분명하였고, 고무 탄력성을 보였다.

검사 소견 : 일반혈액검사, 요검사 및 혈침검사등은 정상이었다.

방사선소견 : 우측 견관절 단순 촬영상 연부 조직의 종창 소견 이외에 골이나 관절 연골의 이

Fig. 1. Rt. shoulder A-P shows bulging of soft tissue. Bone and Joint were normal.

Fig. 2. Rt. shoulder ultrasonogram shows two echogenic, cystic mass.

Fig. 3-A. Rt. shoulder CT scan shows two cystic mass which were close related to the proximal humerus.

Fig. 3-B. Also intensified figure show two cystic mass.

Fig. 4-A. Yellowish brown colored mass were excised.

상 소견은 보이지 않고 있다(Fig. 1). 우측 견관절 초음파 검사상 Echogenic음영을 가진 2개의 낭종이 보이고 있다(Fig. 2). 우측 견관절 전산화 단층 영상 견관절 및 근위부 상완골과 인접한 2개의 낭종이 견갑하근과 대흉근 사이에 위치하고 있는 소견을 보이고 있다(Fig. 3-A,B).

Fig. 4-B. Excised synovium.

수술 및 수술적 소견 : 전신 마취하에 액와 도달법으로 종류를 박리하였다. 근위부 종류는 견갑하근과 대흉근 사이에 위치하고 있었으며 견관절의 활액막에서 기시하고 있었다. 종류의 천자에서 황갈색의 액체가 소량 인지 되었다(Fig. 4-A,B).

조직학적 소견 : 활액막의 용모성 증식이 보이

Fig. 5-A. Villous growth of synovial membrane H-E stain($\times 40$).

Fig. 5-B. Round cells with multinucleated giant cells were infiltrated in the hyalinized fibrous stroma H-E stain ($\times 20$).

고, 초자화된 섬유기질 내에 다핵거대세포 및 포말세포가 보이며, 갈색의 세포를 포함한 대식세포가 보이고 있다(Fig. 5-A, B, C).

고 찰

1952년 Chassaignac등¹¹⁾에 의해 인지와 중지 의 굴건초에 발생한 결절형의 처음 보고된 이래 다양한 명칭으로 불리워 오다. 1941년 Jaffe등²⁴⁾에 의해 Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis로 명명 되었다.

본 질환의 원인에 대해 De Santo등¹³⁾, Galloway등¹⁸⁾, Hirohata등²²⁾은 지질 대사의 장애라 하였고, Fisk등¹⁴⁾, Myer등²⁹⁾, Young등⁴⁰⁾은 만성적 반복적 외상과 지속적 혈관질환이 원인이라 기술하였고, Geschickter등¹⁹⁾은 종자골의 파골세포가 증식되어 발생된다 하였고, Targett등³⁷⁾, Dowd등¹³⁾, Stewart등³⁶⁾, Geschickter등¹⁹⁾은 Ne-

Fig. 5-C. Foam cell and brownish pigment-laden macrophage were infiltrated H-E stain ($\times 400$).

oplasm이라 하였고 Wright등³⁰⁾은 악성 변화의 가능성이 잠재한다 하였으나 Lichtenstein등²⁸⁾은 악성변화의 예는 없다고 보고 하였다. 현재 많은 저자들에 의해 가장 신빙성이 높은 것으로 믿고 있는 원인은 비특이성 염증반응이다. Dor등¹³⁾에 의해 맨 처음 기술되었으며, Jaffe등²⁴⁾은 원인모를 인자에 대한 비세균성 염증 반응이라 주장 하였고 최근 많은 연구 결과에 의해 증명 되었으나 지난 45년간 염증 반응을 일으키는 유발인자는 밝혀지지 않고 있다⁴⁰⁾

본 질환은 Myer등²⁹⁾의 보고에 의하면 일년에 백만명당 1.8명의 빈도로 발생된다 하였다.

본 질환은 Granowitz등²⁰⁾에 의해 국소형과 미만형으로 세분화 하였고, 대부분의 예에서 하나의 관절만 침범하며 슬관절에서 가장 호발하는 것으로 보고되고 있다. Atmore등⁹⁾은 젊은 성인층에서 호발하며, Flandry등¹⁵⁾은 국소형은 20~40대에서 미만형은 10~20대에서 발생한다 하였고 남자에서 보다 높은 빈도를 보인다 하였다.

임상증상 및 혈액검사 소견은 특이하지 않고 초기 방사선 소견상 연부 조직의 종창이외에 특이 소견을 발견할수 없으며, 관절경검사, 관절조영술, 혈관조영술, 전산화단층촬영술이 시행 될 수 있으나 진단적 가치는 높지않다^{25, 32~33)}.

조직학적 소견은 활액막세포와 결체조직이 혼재해 있고, 용모의 증식, 포말세포, 다핵거대세포가 발견되며 단핵세포나 조직구내에 황갈색 색소를 포함하고 있는 양상을 보인다^{16, 20, 24, 29, 30)}.

본 질환의 치료는 활액막 절제술, 방사선 조사술, 관절 치환술등이 보고되고 있으며^{13, 18, 21, 26)}, 치료 후의 재발율은 보고자 마다 다르지만 11%에서 48%까지 보고되고 있다^{9, 10, 16, 17, 25, 31)}.

결 론

본 교실에서는 비교적 희귀한 것으로 보고되고 있는 건관절에서 결절형의 Pigmented villonodular synovitis 1례를 국소 절제술로 치료하여 18개월간 추시하여 재발없이 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) 강문지, 장준섭 : Pigmented villonodular synovitis 4례 보고. 대한정형외과학회지, 13 : 1978.
- 2) 강창수, 편영식, 이충길, 박노문 : 고관절에 발생한 Pigmented villonodular synovitis 1례. 대한정형외과학회지, 14 : 1979.
- 3) 김광희, 이희수, 손승원 : Pigmented villonodular synovitis 1례 보고. 대한정형외과학회지, 5 : 1970.
- 4) 김수정, 박장원 : 슬부 Pigmented villonodular synovitis 3례보고. 대한정형외과학회지, 3 : 1968.
- 5) 김익동, 이수영, 인주철, 박병철 : Bursa anserira에 발생한 Pigmented villonodular synovitis 대한정형외과학회지, 11 : , 1976.
- 6) 김택희, 오태영, 김기용 : Pigmented villonodular synovitis 대한정형외과학회지, 7 : 1972.
- 7) 박인현, 김동현, 박명율, 나도영, 강신광 : 좌측고관절에 발생한 미만형 색고용모 결절성 활액막염 2례. 대한정형외과학회지, 23 : 1988.
- 8) 함동수, 이재무 : 착색성 용모 결절성 활액막염 2례. 대한외과학회지, 7 : 1965.
- 9) Atmore, W.G., Dahlin, D.C. and Ghormley, R.K. : Pigmented villonodular synovitis. A clinical and pathologic study. *Minnesota med.*, 39 : 196-202, 1956.
- 10) Byers, P.D., Cotton, R.E., Deacon, O.W., Lowy, M., Newman, P.H., Sissons, H.A. and Thompson, A.D. : The diagnosis and Treatment of pigmented villonodular synovitis. *J. Bone and joint surg.*, 50-B(2) : 290-305, 1968.
- 11) Chassaignac : *Cancer de la gaine des tendons. Gazette des hopitaux civils et militaires*, p. 185, 1852.
- 12) Chung, S.M.K. And Janes, J.M. : Diffuse pigmented villonodular synovitis of the hip joint. review of the literature and report of four cases. *J. Bone and joint surg.*, 47-A : 293-303, March 1965.
- 13) De Santo, D.A. and Wilson, P.D. : Xanthomatous tumor of joint. *J. Bone and joint surg.*, 21 : 531, 1939.
- Dor. L. Relations des tumeurs a myeloplaxes et des xanthomes. *Congres de chirurgie*, 12, 533, 1898.
- Dowd, C.N. : Villous arthritis of the Knee (sarcoma). *Annals of royal college of surgeons of England*, 11 : 157, 1952.
- 14) Risk, G.R. : Hyperplasia and metaplasia in synovial memberane. *Annals of the royal college of surgeons of England*, 11 : 157, 1952.
- 15) Flandry, F.C., Hughston, J.C., Barrack, R.L., Kurtz, D., McCann, S. and Jacobson, K.E. : Pigmented villonodular synovitis of the knee. *Orthop. Trans.*, 10 : 599, 1986.
- 16) Fraire, A.E. and Fechner, R.E. : Intra-Articular localized nodular synovitis of the knee. *Arch. Pathol.*, 93 : 845-851, 1969.
- 17) Friedman, and Schwartz, E.E. : Irradiation therapy of pigmented villonodular synovitis. *Bull. Hosp. Joint dis.*, 18 : 19-32, 1957.
- 18) Geschickter, C.F. and Coppeland, M.M. : Tumors of bone. Ed. 3, pp. 686-706. Philadelphia, J. B. Lippincott. 1949.
- 19) Galloway J.D.S., Broders, A.C. and Ghormley, R.K. : Xanthoma of tendon sheath and synvial membranes. *Arch. of Surg.*, 40 : 485, 1940.
- 20) Granowitz, S.P. and mankin, H.J. : Localized pigmented villonodular synovitis of the knee. Report of five cases. *J. Bone and joint surg.*, 49-A : 122-128, Jan. 1967.
- 21) Greenfield, M.M. and Wallace, K.M. : Pigmented villonodular synovitis. *Radiology*, 54 : 350-356, 1950.
- 22) Hirohata, and KaZushi : *Light microscop-*

- pic and electron microscopic studies of individual cells in pigmented villonodular synovitis and bursitis. *Kobe J. Med. Sci.*, 14 : 251-279, 1968.
- 23) Hoagland F.T. : *Experimental hemarthrosis, the response of canine knees to injections of autologous blood.* *J. bone and joint sur.*, 49-A : 285-198, 1968.
 - 24) Jaffe, H.L., Lichtenstein, L. and Sutro, C.J. : *Pigmented villonodular synovitis, and tenosynovitis. A discussion of the synovial and bursal equivalents of the tenosynovial lesion commonly denoted as xanthoma. Xanthogranuloma, giant cell tumor or myeloplaxoma of the tendon sheath, with some consideration of this tendon sheath lesion itself.* *Arch. Pathol.*, 31 : 731-7365, 1941.
 - 25) 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.
 - 26) Kling, D.H. and Sashin, D. : *Hemorrhagic villous synovitis of knee joint due to xanthoma ; Report of case.* *Arch. Surg.* 30 : 52-61, 1935.
 - 27) Lewis, R.W. : *Roentgen diagnosis of pigmented villonodular synovitis and synovial sarcoma of the knee joint. Preliminary report.* *Radiology*, 49 : 26-38, 1947.
 - 28) Lichtenstein, L. : *Tumors of synovial joints, bursae and tendon sheath.* *Cancer.* 8 : 816, 1984.
 - 29) Myers, B.W., Masi, A.T. and Feigenbaum, S.L. : *Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis. A clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review.* *Medicine*, 59 : 223-238, 1980.
 - 30) Nilsonne, U.F. and Vigorita, V.J. : *Pigmented villonodular synovitis of joints. Histological and clinical problems in diagnosis.* *acta. Orthop. Scandinavica*, 40 : 448-460, 1969.
 - 31) Rao, A.S. and Vigorita, V.J. : *Pigmented villonodular synovitis(Giant-cell tumor of tendon sheath and synovial membrane). A review of eighty-one case.* *J. Bone and joint surg.*, 66-A : 76-94. Jan. 1984.
 - 32) Rein, B.I., Bilodeau, L.P. and Johanson, R. : *Arthrography and arteriography in pigmented villonodular synovitis of the knee.* *Am. J. Roentgenol.*, 92 : 1322-1327, 1964.
 - 33) Rosenthal, D.I., Aronow, S. and Murray, W.T. : *Iron content of pigmented villonodular synovitis detected by computed tomography.* *Radiology*, 133 : 409-411, 1979.
 - 34) Simon, G. : *Exstirpation einer sehr grossen, mit dickem stiele angewachsenen kniegelenkmaus mit glucklichem erfolge.* *Arch. Klin. Chir.*, 6 : 573-576, 1864.
 - 35) Smith, J.H. and Pugh, D.G. : *Roentgenographic aspects of articular pigmented villonodular synovitis.* *Am. J. Roentgenol.*, 87 : 1146-1156, 1962.
 - 36) Stewart, M.J. : *Benign giant-cell synovio-ma and its relation to "Xanthoma".* *J. Bone and joint surg.*, 30-B(3) : 522-527, 1948.
 - 37) Targett, J.H. : *Giant-celled tumours of the integuments. transactions of the pathological society of London*, 48 : 230, 1897.
 - 38) Wright, C.J.E. : *Benign giant-cell synovio-ma. Aninvestigation of 85 cases.* *British J. Surg.*, 38 : 257-271, 1951.
 - 39) Wyllie, J.C. : *The stromal cell reaction of pigmented villonodular synovitis. An electron microscopic study.* *Arthrit, and Rheumat.*, 12 : 205-214, 1969.
 - 40) Young, J.M. and Hudacek, A.G. : *Experimental production of villonodular synovitis in dogs.* *Am. J. Pathol.*, 30 : 799-806, 1954.