

## 고관절에 발생한 색소염모 결절성 활액막염

울산대학교 의과대학 서울중앙병원 정형외과학교실

김기용 · 이수호 · 조태연

### — Abstract —

### Pigmented Villonodular Synovitis of the Hip Joint

Key-Yong Kim, M.D., Soo-Ho Lee, M.D. and Tae-Yun Cho, M.D.

Department of Orthopaedic Surgery, University of Ulsan Medical College,  
Asan Medical Center, Seoul, Korea

Pigmented villonodular synovitis is a benign lesion that develops in joint lining and is characterized by an exuberant inflammation. Many authors have discussed etiology, clinical and radiological features, pathology and treatment regarding the disease. This occurs most commonly in the knee joint as a monoarticular proliferative process, but rarely in the hip joint. It is a nonneoplastic disease but may develop as an aggressive local process with bone and joint destruction.

Sometimes clinician can not detect it in early time because of its nonspecific clinical findings and misdiagnose it as sarcomatous process. So, early diagnosis of hip joint involvement is necessary because destruction of the femoral head and acetabulum is the ultimate outcome if treatment is not initiated. We report two cases of pigmented villonodular synovitis involving the hip joint, which were diagnosed and treated in our department.

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

### 서 론

색소염모 결절성 활액막염은 관절내면에서 활발한 염증반응을 보이는 양성 질환으로, 많은 저자들에

의해 그 원인 병리 및 진단과 치료에 대해서 논의되어 왔다. 관절에 발생한 색소염모 결절성 활액막염은 여러 저자에 의해 보고된 바 있으나 슬관절의 경우가 대부분이었고 고관절의 예는 드물다. 본 질환은 종양성 질환은 아니지만 골과 관절의 급속한 파괴를 가져오고, 종종 비특이적 임상 소견으로 인해 초기 진단이 어려울 뿐 아니라, 육종성 질환으로 오진하는 경우가 있다. 특히 고관절에 발생한 색소염

※ 통신저자 : 김 기 용

서울시 송파구 풍납동 388-1  
서울중앙병원 정형외과

모 결절성 활액막염은 조기 치료를 하지 않을 경우 심각한 합병증을 가져올 수 있으므로, 조기 진단 및 치료가 절실하다.

본 교실에서는 고관절에 발생한 색소용모 결절성 활액막염 2례를 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## 증 례

### 증례 1 : 김 ○ 아, 여자, 14세

주소 : 좌측 고관절통

병력 : 내원 8개월전부터 뚜렷한 이유없이 좌측 고관절 부위에 동통이 발생하였으나, 치료없이 지내다 2개월전 부터는 앉아 있기가 힘들어 본원 내원하였다.

과거력 및 가족력 : 특이사항 없었다.

이학적 소견 : 내원 당시 발육상태는 양호하였고 좌측 고관절 부위의 압통이 있었으나 종창은 촉진되지 않았다. Patrick 검사는 양성이었으며 운동 범위는 굴곡 130도, 외전 40도, 내회전 및 외회전은 각기 0도와 40도 이었다.

검사 소견 : 일반 혈액검사, 요검사 및 혈청 검사 등은 정상하였고, C-반응성 단백과 류마티스 인자는 음성이었으며, 혈중 칼슘, 인, 알칼리성 포스파타제 및 콜레스테롤 등도 정상이었다.

방사선 소견 : 좌측 고관절의 단순 방사선 촬영상, 좌측 대퇴골두 골단의 외측, 피질골의 미란을 나타냈고, 골주사 검사상 좌측 고관절 부위에 비정상적으로 동위원소 활성도가 증가된 양상을 보였다. 자기공명 영상상 T1 강조 영상에서 저 신호 강도의 결절성 덩어리가 좌 대퇴 골두 및 경부 외측에 있었고, T2 강조 영상에서는 중 신호 강도의 덩어리가 관찰되었고, 대퇴골두에서는 관절액과 통하는 연골하낭종이 관찰되었다(Fig. 1, 2, 3, 4).

수술 및 수술소견 : 전신마취하에서 전방도달법으로 고관절 활액막 절제술을 시행하였다. 소견으로는 암갈색으로 착색된 관절낭이 팽창되어 있었고 관절낭 절개시 암갈색의 관절액이 유출되었으며 암갈색의 작은 결절성 덩어리들이 대퇴골두 및 경부에 침윤되어, 그 부위에 착색되어 있는 것이 관찰되었다.

병리학적 소견 : 육안 소견은 황갈색의 불규칙적인 돌기들이 커다란 종괴를 형성하고 있었고, 현미

경 소견으로는 병변은 수많은 유두상 돌기들로 이루어져 있으며, 각 돌기들은 표면의 입방형 세포들과 포말 세포와 혈색소를 포함한 조직구로된 기질로 구성되어 있다. 다핵 거대세포도 많이 관찰되었다(Fig. 5, 6-A, B).

수술후 경과 : 술후, 4주후 목발 이용한 부분체중 부하 보행을, 8주부터 전체체중부하보행을 허용하였다. 술후 1년 9개월에 시행한 이학적 검사상 고관절 운동 범위는 굴곡 70도, 내, 외전이 각기 40도, 내회전 및 외회전은 각기 20도로 감소되어 있었고, 좌 고관절 동통은 없으나 파행이 지속되어 자기공명 영상 검사를 시행한 결과, 좌 고관절주위에 술후 변화는 관찰되었으나, 재발의 소견은 없었다(Fig. 7).

### 증례 2 : 이 ○ 순, 여자, 54세

주소 : 우측 고관절통

병력 : 내원 1년전부터 서서히 진행된 우측 고관절통으로 타 병원에서 치료받았으나, 증상호전없고, 1개월전부터 보행시 동통이 심해져 본원 내원하였다.

과거력 및 가족력 : 고혈압으로 15년간 약물치료를 하였다.

이학적 소견 : 우측 고관절부의 압통은 있으나 종창은 촉진되지 않았고, 우측 고관절의 운동범위는 굴곡 90도, 외전 20도, 내회전 및 외회전은 각기 5도와 20도이었다.

검사 소견 : 술전 시행한 각종 검사는 모두 정상이었다.

방사선 소견 : 단순 방사선 촬영상, 우 대퇴골두에 골연화 및 경화 소견이 혼재되어 있고 피질골연의 불규칙성이 관찰되며, 비구에도 불규칙한 골연화 소견을 보이고 있다. 골주사 검사상, 우 대퇴골두 및 비구에 비정상적으로 증가된 동위원소 활성도를 보였다. 자기공명 영상상 T1 강조 영상에서 우측 비구, 대퇴경부, 골두 및 주변 근육조직내에 경계가 명확한 저 신호 강도로 보이는 병변이 관찰되었다. T2 강조 영상에서는 중 신호 강도의 병변이 T1 강조 영상에서와 동일하게 나타났다(Fig. 8, 9, 10, 11).

수술 및 수술소견 : 전신마취하에서 후측방 도달법으로 고관절을 후방 탈구시킨후 활액막 절제술 및 골 시멘트 사용않은 고관절 전치환술을 시행하였다. 소견으로서는 3X4X1cm 크기의 황갈색 활액막 일

**Fig. 1.** Anteroposterior view shows cortical erosion at the lateral aspect of the left femoral epiphysis (arrowed).

**Fig. 3.** T1WI shows low signal intensity which located at the lateral aspect of femoral head and neck.

**Fig. 2.** Bone scan shows slightly increased uptake on the left hip joint.

부가 관절낭을 뚫고, 주위 근육내에 분포되어 있었고, 내부에는 결절성 종괴가 차 있었다. 관절낭 절제시 종괴는 대퇴경부의 전외측을 싸고 있었으며, 갈색으로 착색된 대퇴골두를 관찰할 수 있었다.

**Fig. 4.** T2WI shows mass like lesion of intermediate signal intensity on the lateral aspect of femoral head and neck as small subcondral cyst like lesion.

**Fig. 5.** Gross findings of specimen : multiple fragments of bright brown soft tissue which are uncapsulated papillary ingrowth.

병리학적 소견 : 육안소견상 황갈색을 띤 불규칙적인 조직들이 대퇴골 두부와 경부에 부착되어 있었

**Fig. 6-A.** Low power microscopic view(H-E. X 100) : lesion consists of papillary fronds of histiocytes and hemosiderin laden macrophages.  
**B.** High power microscopic view(H-E X 400) : Multinucleated giant cell are frequently seen.

**Fig. 7.** Postoperative changes and no evidence of recurrence are seen on follow up MRI after 21 months,

**Fig. 8.** Anteroposterior view shows hip joint space narrowing and irregular margin and multiple cystic lesions on right femoral head.

고 현미경 소견상 병변은 대부분 조직구와 만성염증 세포로 이루어진 유두상돌기로 구성되어 있었다

**Fig. 9.** Bone scan shows abnormally increased uptake on right hip joint.

(Fig. 12, 13-A, B).

수술후 경과 : 술후 2일부터 대퇴사두근 긴장운동을 시행하였고, 술후 2주부터 6회에 걸쳐 각 200Gy씩 총 1,200Gy의 방사선 치료를 하였다. 술후 3개

**Fig. 10.** T1WI shows irregularly destroyed femoral head and low signal intensity huge mass invading muscle around right hip joint.

**Fig. 12.** Gross findings of specimen : irregular fragmentation of brown soft tissue is attached at femoral neck.

월에 부분체중부하 보행을, 4개월에 전체중부하 보행을 허용하였다. 술후 1년 10개월에 시행한 이학적 검사상 운동범위는 굴곡 100도, 외전 40도, 내회전 및 외회전은 각기 20도였다. 파행 및 동통은 없었으며 방사선 소견상 재발의 소견은 없었다(Fig. 14).

## 고 찰

**Fig. 11.** T2WI shows intermediate signal intensity nodular mass which located around right hip joint.

색소용모 결절성 활액막염은 Chassaignac<sup>9)</sup>이 수지 굴건의 활액막에 발생한 결절성 병변을 기술하고, Simon<sup>15)</sup>이 슬관절에서 발생한 결절을 "Xanthoma of synovial membrane"이라고 기술한 이래, 여러 저자들에 의해 각기 다른 명칭으로 불리워지다, 1941년 Jaffe등<sup>11)</sup>에 의해 pigmented vil-

**Fig. 13-A.** Low power microscopic view(H-E, X 100) : lesion consists of chronic inflammatory cells as well as proliferating blood vessels.

**B.** High power microscopic view(H-E X 400) : polypoid projections of histiocytes and chronic inflammatory cells.

**Fig. 14. Synovectomy and cementless total hip arthroplasty were done.**

lonodular synovitis로 명명되었다.

본 질환의 원인에 대해 Jaffee<sup>11)</sup>의 연구이전에는 일종의 종양으로 여겨져 왔으나, Hirohata<sup>10)</sup>는 지질대사 장애에 의한 국소적 염증반응이라고 기술하였고, Convery등<sup>9)</sup> 및 Singh등<sup>16)</sup>은 외상에 의해 유발되는 질환이라고 하였다. 근래에 Rao와 Vigorita<sup>14)</sup>는 섬유아세포나 섬유조직구의 종양성 증식이라고 주장하였으나, 아직까지는 Jaffe등<sup>11)</sup>이 제시한 염증성 반응이란 견해가 지배적이며 이것은 최근 전자현미경적 관찰로 뒷받침되어지고 있다<sup>18)</sup>. 이 질환의 발병율은 Myers 등<sup>13)</sup>은 연간 백만명당 1.8명이라 하였고, 슬관절에 가장 많이 이환된다고 하였다. 고관절에 발병한 예는 매우 드물며 Allen과 Clement<sup>3)</sup> 및 Rao와 Vigorita<sup>14)</sup>는 문헌 고찰상 각각 75례와 81례만이 보고된 바 있다고 하였으며 Steven등<sup>17)</sup>은 고관절에서의 발병율은 0.8-18%로 통계하였고, 국내에서는 2례가 보고된 바 있다<sup>1,2)</sup>.

임상증상은 서서히 진행되는 통증과 관절 강직, 부종, 국소발열등이 나타날 수 있으며, 혈액학적 검사상 진단에 유용한 검사는 없는 것으로 알려지고 있다<sup>4,12,13,17)</sup>. 본 2례에 있어서도 서서히 진행된 고관절통 및 경미한 관절 운동 범위의 제한외에는 다른 증상이 없었고, 혈액학적 검사상 이상 소견은 없었다. 단순 방사선 소견소견은 3군으로 나눌 수 있으며<sup>7)</sup>, 첫째는 아무런 변화가 없는 군, 둘째는 활액막 연의 소견을 보여 활액막의 팽창, 골의 표면 미란 및 낭종 소견이 나타내는 최소변화군, 셋째는 소엽성 외형 및 서로 다른 밀도의 미만성 비석회화 활액막의 종창을 보이는 광범위 침범군이다. 본례에서는 1례는 최소변화군, 나머지 1례는 광범위 침범군이었다.

조직학적으로는 국한된 부위에 원형 세포가 산재 혹은 밀집되어 있고 약간의 교원화를 보이는 국소 결절형과, 활액세포와 결체 조직이 망상으로 엉켜 용모막을 보이며 지질을 포함하는 세포와 다핵 거대 세포가 많이 보이는 미만형으로 구분할 수 있으며, 본 증례에서는 2례 모두 미만형의 소견을 보였다.

진단은 병력, 임상소견, 방사선 소견 및 조직학적 소견 등으로 이루어지고 있으나, 최근 CT 및 MRI 사용 이후 진단이 용이하여졌으며<sup>3,8)</sup>, Allen과 Clement<sup>3)</sup>는 CT와 MRI의 진단의 정확성이 비슷하다 하였으나, George등<sup>8)</sup>은 MRI가 정확한 진단과 치료에 가장 좋은 방법이라 하였다. 증례 1에서는 단순 방사선 촬영상 특별한 이상을 관찰 못하였으나 MRI 촬영후 방사선 사진을 재검토하여 이상 소견을 발견하였고, 증례 2에서는 단순 방사선 촬영상 대퇴골두의 무혈성 괴사로 진단되어졌으나, MRI 촬영후 본 질환으로 진단되었다.

치료는 방사선 치료와 수술적 요법이 있으며 수술적 요법으로는 활액막 절제술, 관절 고정술, 관절 치환술 등이 보고되고 있고, Johansson등<sup>12)</sup> 및 Steven등<sup>17)</sup>은 수술시 관절 파괴의 양상이 보이면 광범위한 활액막 절제술과 함께 관절 치환술을 시행해야 한다고 했다. 그러나 이 질환의 회귀성으로 아직 확립된 치료 방법은 없다. 고관절에 발생한 경우에 있어서는 예후는 아직까지 명확하지 않으나, Herbert등<sup>8)</sup>에 의해 99례의 환자를 수술후 평균 13.5년 추적 관찰하여 1년내 7.1%, 5년내 15%, 10년내 27%, 15년내 31%, 25년내 35%의 재발율을 보고 하였다. 본 증례에서는 1례는 활액막 제거술만을 시행했고, 1례에서는 활액막 제거술과 아울러 골 시멘트 사용 않은 고관절 전치환술 및 술후 방사선 치료를 시행하였으며, 각각 1년 9개월 및 1년 10개월 추시 기간동안 재발은 없었다.

## 요 약

저자들은 대단히 희귀한 고관절에서 발생한 색소 용모 결절성 활액막염 2례를 치험하여 좋은 결과를 얻었기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

## REFERENCE

- 1) 김창수, 편영식, 이충길, 박노문 : 고관절에 발생한

- Pigmented Villonodular Synovitis 1례. *대한정형외과학회지*, 14:412-415, 1979.
- 2) 박인현, 김동현, 박명률, 나도영, 강신광 : 좌측 고관절에 발생한 미만형 색소용모 결절성 활액막염 1례 보고. *대한정형외과학회지*, 23:1212-1216, 1988.
  - 3) **Allen DBJ and Clement Bs** : Evaluation of the hip with pigmented villonodular synovitis. A case report. *Clin Orthop*, 275:180-186, 1992.
  - 4) **Byers PD, Cotton RE, Deacon OW, Lowy M, Newman PH, Sissons HA and Thompson AD** : The diagnosis and treatment of pigmented villonodular synovitis. *J Bone Joint Surg*, 50-B:290-305, 1968.
  - 5) **Convery FR, Woo SLY, Akesson WH, Amiel D and Malcom LL** : Experimental hemarthrosis in the knee of the mature canine. *Arthrit and Rheumat*, 19:59-67, 1976.
  - 6) **Chassaignac M** : Cancer de la gaine des tendons. *Gazette des hopitaux civils et militaires*. pp. 185-186, 1852(Cited from Flandry F and Hughston JC : Current concepts review-Pigmented villonodular synovitis. *J Bone Joint Surg*, 69-A:942-949, 1987).
  - 7) **Flandry F and Hughston JC** : Pigmented villonodular synovitis-Current concepts review. *J Bone Joint Surg*, 69-A:942-949, 1987.
  - 8) **George MW, Andrew G and Peter NK** : Magnetic resonance imaging in the diagnosis of aggressive villonodular synovitis. *Clin Orthop*, 236:303-306, 1988.
  - 9) **Herbert SS, Krishnan KU and Douglas JP** : Pigmented villonodular synovitis - A retrospective review of affected large joints. *Clin Orthop*, 247:243-255, 1989.
  - 10) **Hirohata K** : Light microscopic and electron microscopic studies of individual cells in pigmented villonodular synovitis and buretts. *Kobe J Med Sci*, 14:251-279, 1968.
  - 11) **Jaffe HL, Lichtenstein L and Sutro CJ** : Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis. *Arch of Pathology*, 31:731-765, 1941.
  - 12) **Johansson JE, Ajjoub S, Coughlin LP, Wener JA and Cruess RL** : Pigmented villonodular synovitis of joints. *Clin Orthop*, 163:159-166, 1982.
  - 13) **Myers BW, Masi AT and Feigenbaum SL** : Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis. A clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review. *Medicine*, 59:223-238, 1980.
  - 14) **RaO AA and Vigorita VJ** : Pigmented villonodular synovitis(Giant-cell tumor of tendon sheath and synovial membrane). A review of eighty-one cases. *J Bone Joint Surg*, 66-A:76-94, 1984.
  - 15) **Simon G** : Exstirpation einer sehr grossen, mit dickem stiele angewachsenen kniegelenkmaus mit gluckichem erfolge. *Arch Klin Chir*, 6:573-576, 1984.
  - 16) **Singh R, Grewal DS and Chakravati RN** : Experimental production of pigmented villonodular synovitis in the knee and ankle of rhesus monkeys. *J Pathol*, 98:137-142, 1969.
  - 17) **Steven G, David H and Timothy M** : The treatment of pigmented villonodular synovitis of the hip. A case report and literature review. *Clin Orthop*, 239:154-160, 1989.
  - 18) **Wiss DA** : Recurrent villonodular synovitis of the knee. Successful treatment with Yttrium-90. *Clin Orthop*, 169:139-144, 1982.