

Heterotopic Ossification in Post-Burn Scar Contracture of the Wrist

Jae Hyun Kim, Su Bin Do,
Chul Hoon Chung

*Department of Plastic and Reconstructive
Surgery, Hallym University Kangdong Sacred
Heart Hospital, Hallym University College of
Medicine, Seoul, Korea*

Received: November 20, 2015

Revised: [1] December 22, 2015

[2] December 26, 2015

Accepted: January 7, 2016

Correspondence to: Jae Hyun Kim

Department of Plastic and Reconstructive
Surgery, Hallym University Kangdong Sacred
Heart Hospital, Hallym University College
of Medicine, 150 Seongan-ro, Gangdong-gu,
Seoul 05355, Korea

TEL: +82-2-2224-2246

FAX: +82-2-488-0114

E-mail: jaykay0219@naver.com

Heterotopic ossification is one of the well known complications related to burn and mainly involves major joints and lower extremity, but heterotopic ossification of the hand has been rarely reported. The authors experienced treatment of heterotopic ossification in post-burn scar contracture of the wrist by wide excision with full thickness skin graft and there was no complication such as recurrence. As heterotopic ossification with ulceration is hard to cure with conservative treatment, it must be removed completely by surgical treatment. If ulceration in burn scar of the hand doesn't heal with the conservative treatment, differential diagnosis of heterotopic ossification will be made first.

Keywords: Heterotopic ossification, Hand, Burn

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/bync/3.0/>) which permits unrestricted noncommercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

서론

이소성 골화증은 연부조직에 성숙한 층판골이 형성되는 상태를 말하며 발병기전은 명확하지 않으나 관절수술, 골절, 탈구, 화상, 신경계 손상, 유전학적 질환 등의 여러 상황 하에서 발생 가능하다¹. 그 중 화상 반흔에서 발생하는 이소성 골화증은 1957년 Johnson이 처음으로 보고한 후 현재는 잘 알려진 합병증 중 하나로 주로 주관절, 견관절, 고관절 같은 큰 관절

들이나 하지를 침범하지만, 수부에 발생한 경우는 극히 드물다¹⁻³. 궤양을 동반한 이소성 골화증은 보존적 치료로는 완치가 어려우므로 수술적 치료를 통한 골화 조직의 완전한 제거가 반드시 이루어져야 하나³ 수부에 발생하는 경우가 드물어 적절한 진단과 치료가 어려울 수 있다. 이에 저자들은 손목 부위의 화상 후 반흔 구축에서 발생한 이소성 골화증을 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

60세 여자 환자가 내원 수개월 전 넘어지면서 우측 손목을 부딪힌 이후 척측 부위에서 발생한 만성 궤양을 주소로 본원을 내원하였다. 43년 전 우측 복부와 허리 그리고 우측 손목 및 전완부에 화상 수상 면적 9%~10% 정도의 열탕 화상을 입은 후 보존적 치료를 받은 과거력 있으며 손목을 부딪히기 전까지는 특별한 문제가 없었고 고혈압 외에는 동반 질환이나 가족력도 없었다. 약간의 통증 외에는 가려움증 같은 특이할 만한 증상은 없었으며 우측 손목 척측부에 염증과 혼탁한 분비물을 동반한 직경 1-2 cm 가량의 다발성 궤양이 관찰되었고 궤양의 주변부로 단단한 종괴들이 축적되었다. 외래에서 조직생검으로 마줄린 궤양(marjolin's ulcer) 등의 악성 종양 여부를 감별하였고 만성 염증을 동반한 석회화 소견이 관찰되었다. 손목 관절은 심한 화상 반흔 구축으로 배측으로 90° 정도 신전되어 관절의 운동이 전혀 없는 상태였다(Fig. 1). 단순방사선 검사에서 손목 및 전완부의 피하조직에 골조직 음영과 유사한 다발성의 석회화가 넓게 분포하는 것을 확인할 수 있어(Fig. 2) 이를 경계로 광범위한 절제술 및 전층 피부이식술을 시행하였다(Fig. 3). 이식한 피부 대부분이 잘 생착되었으나 피부이식편 경계부분에 국소적인 결손이 있어 부분층 피부이식술 및 국소피판술을 추가적으로 시행하였다. 조직학적 검사에서는 진피와 피하조직에 골조직과 경화증이 형성되어 있었고 이영양성 석회화 및 퇴화 그리고 광범위한 조직의 섬유화를 동반한 다발성의 산재된 탄분성의 색소침착을 관찰할 수 있었다(Fig. 4). 손목관절의 배측 신전은 화상 반흔 제거 후 90°에서 40° 정도로 완화되었으나 관절의 강직이 심해 관절의 운동범위는 굴곡 신전 방향에서 10°에서 20° 정도 움직이는 것 외에는 다른 움직임은 전혀 없었다. 수술 후 1년



Fig. 1. Preoperative photograph shows multiple ulceration about 1-2 cm in diameter accompanying inflammation and hard scars around the ulceration.

9개월째 촬영한 방사선 사진에서 남아있는 석회화는 발견할 수 없으며 수술 부위에 통증이나 재발 등의 합병증도 없었다(Figs. 5, 6).



Fig. 2. Preoperative plain radiograph shows multiple calcification widely distributed in the subcutaneous region of the forearm and wrist.



Fig. 3. Photograph of excised soft tissue containing heterotopic ossified tissue.

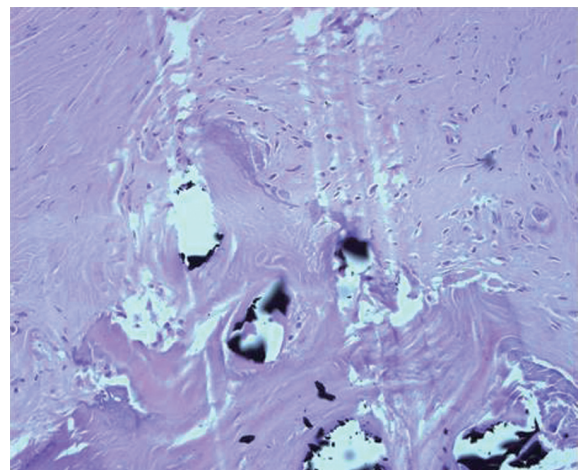


Fig. 4. Different stages of dermal dense sclerosis area, dense calcification area and ossification area and scattered osteoblasts found at ossifying area (H&E, ×100).



Fig. 5. Postoperative photograph 1 year 9 months after the surgery.



Fig. 6. Postoperative plan radiograph 1 year 9 months after the surgery shows no calcification in the subcutaneous region of the forearm and wrist.

고찰

화상 후에 생기는 이소성 골화증의 발병기전은 아직 명확하지 않다. 외상 등의 국소적, 전신적 불균형 요인에 의해 유도된 골조상세포(osteoprogenitor cell)의 존재가 이소성 골화증을 유발한다는 가설이 있으며², 조직학적으로는 미분화된 중간엽 줄기세포(mesenchymal stem cell)나 섬유모세포(fibroblast)가 골모세포(osteoblast)로 비정상적 분화하여 골조직이 아닌 연부조직에 석회화 조직을 형성하는 것으로 보고 있다^{3,4}. 다양한 연구 결과에서 전체 화상 환자 중 이소성 골화증 발생률은 1%에서 3% 정도로 보고되고 있으나², 발생률에 대해 후향적 연구를 시행한 Jackson은 화상 반흔이 있는 환자들의 0.1%에서 이소성 석회화가 발생하는 것으로 보고하였고³ 8년간 5075명의 환자를 분석한 Chen 등²은 0.15%로 보고하였다. 반면 Kang 등³은 3년간 1,470명의 화상 환자 중 14명으로 약 1%였고 Levi 등⁵은 10년간 2,979명 중 98명(3.5%)이 발병하여 상대적으로 높은 수치를 보였는데 이는 각 병원 별 중화상 환자의 비율 차이에 의한 것으로 생각된다.

화상 후 이소성 골화증의 발생에 관련된 요인들로는 화상의 범위와 부위, 장기간의 운동제한, 상처 치유 기간, 조직감염, 혈행장애, 저산소증 등이 있다²⁻⁶. Levi 등⁵은 10년간 2,979명의 환자를 후향적으로 추적한 결과 이소성 골화증이 발생한 98명의 환자 중 97명이 피부이식을 요하는 상지 부위 화상 환자였으며 전체 화상 수상 면적이 30% 이상일 경우 교차비(odds ratio)가 11.5배 증가하였다고 한다. 그리고 Orchard 등⁶은 이소성 골화증 환자군과 대조군 비교 시 화상 수상 면적에 유의미한 차이를 보였으며 이 외에도 장기간의 운동제한, 수술 횟수 그리고 인공호흡기 사용 여부와 기간 등도 이소성 골화증의 발생과 유의미한 연관이 있다고 하였다. 그 외에 유전적 소인과 관련된 보고도 있는데 정상인들은 약 7%만이 가지고 있는 인체백혈구항원(human leukocyte antigen) B27이 이소성 골화증 환자들에게는 70% 정도 발견된다고 한다².

이소성 골화증의 초기에는 단순방사선에서 연부조직의 부종 외에는 특이 소견이 관찰되지 않을 수 있으나 삼상 골주사검사(3-phase bone scan)에서는 모든 상에서 양성 소견을 보이므로 진단에 도움이 된다¹. Engber와 Reynen⁷은 이소성 골화증 발생에 대사 작용의 변화를 고려해 볼 수 있겠으나 혈청 칼슘, 인, 알칼리성 인산분해효소 수치는 질환 예측과 진단에 도움을 주지 않는다고 하였으며 Kim 등¹은 혈청 칼슘과 인은 대개 정상 수치이나 광화작용(mineralization)을 일으키는 다른 질환과의 감별에 중요한 역할을 한다고 하였다. 정확한 진단을 위해 환자의 혈액 검사나 소변 검사 그리고 가족력 및 동반 질환을 면밀히 살펴야 하며 방사선학적 특징과 임상 양상으로 추정할 수 있으나 최종 진단은 조직학적 검사를 바탕으로 이루어진다^{1,3}. 그리고 화상반흔에서 발생할 수 있는 마줄린 궤양 등의 악성 종양 여부를 수술 전 감별해야 적절한 수술 계획을 세울 수 있으므로 조직생검, computed tomography, 자기공명영상, 초음파 등으로 악성 종양 여부를 확인해야 한다^{3,8}. 본 증례의 경우도 혈청 칼슘, 인, 알칼리성 인산분해효소 수치는 정상이었으며 환자의 과거력과 방사선학적 검사를 통해 이소성 골화증을 의심하였고 외래에서 조직생검을 시행하여 악성 종양 여부를 감별한 다음 수술 후 조직학적 검사를 통해 확인할 수 있었다.

치료는 비스테로이드성 소염 진통제 투약과 방사선 조사 등의 비수술적 치료와, 이소성 골 조직의 수술적 제거가 있으며⁹ 화상 후 발생한 이소성 골화증의 경우 석회화 주변의 섬유화와 그에 따른 조직의 혈행 장애로 보존적 치료로는 완치가 어렵기 때문에 외과적 절제술이 가장 효과적인 치료 방법이다³. 하지만 외과적 절제술 시행 시 석회화 조직을 육안으로 확인하기 어려운 단점이 있어 저자들은 궤양을 동반한 화상반흔

을 최대한 제거하려고 하였으며 정상 연부조직이 관찰될 때까지 절제를 진행하였다. 이와 같이 절제 범위를 정확히 결정하기 어려운 경우 Choi 등⁴은 방사선 영상상치 모니터링(C-arm) 하에 절제 범위를 정하여 이를 해결하려고 하였으며 만족할 만한 결과를 얻었다고 한다. 이소성 골화증이 주관절에 발생한 경우 뼈에 근접하여 발생하며 주관절 관절낭, 인대, 척골 신경 주변을 침범하게 되는데 수술 시 관절과 신경에 손상을 주지 않는 한에서 최대한 제거하면 수술 전후 관절 운동 범위가 현저히 향상된다¹⁰. 하지만 본 증례에서 골화 조직을 완전히 제거하였음에도 수술 전후 손목관절 운동 범위의 차이가 크지 않았는데 반흔구축에 의해 40년간 관절이 고정된 상태로 있어 강직이 심하였고 골화 조직이 연부 조직에만 위치하여 제거를 해도 관절 운동에 영향을 미치지 못하였다.

이소성 골화증의 재발을 예방하기 위한 방법으로는 크게 비스테로이드성 소염 진통제 투약과 방사선 조사가 있다. 비스테로이드성 소염 진통제는 사이클로옥시제네이스(Cyclooxygenase)의 작용을 억제하여 이소성 골화증의 발생을 막는 것으로 알려져 있고 인도메타신(Indomethacin)이 가장 많이 사용되며 Schmidt 등은 고관절 수술 후 이소성 골화증의 재발에 인도메타신(Indomethacin)이 단순한 위약효과를 넘어서 효과가 있음을 보고하였다^{2,10}. 방사선 조사도 이소성 골화증의 재발 방지에 효과가 있는 것으로 알려져 있으나 잔존해 있는 이소성 골화증의 경우 이미 세포가 분화하여 골을 형성하였기 때문에 효과가 없다². 본 증례에서는 수술 후 재발 방지를 위해 위에서 서술한 방법들은 사용하지 않았지만 재발은 없었는데 그 이유로 정상 조직을 포함한 화상 반흔의 광범위한 절제술이 시행하였기 때문으로 생각된다.

화상 반흔에 생기는 이소성 골화증은 증상이 없을 경우는 선별검사를 시행하기 어렵기 때문에 예방적 수술은 하기 힘들며, 궤양이 발생한 경우 보존적 치료로 완치가 어려우므로 의심되는 경우 적극적인 진단과 수술적 치료를 통한 골화 조직의 완전한 제거가 반드시 이루어져야 한다. 특히 수부에는 매우 드물게 발생하므로 수부 화상 반흔 내 궤양이 보존적 치료에도 호전이 없을 경우 영상학적 검사나 조직검사 등을 통해 이소성 골화증인지 감별하여 치료에 적용해야 할 것이다.

REFERENCES

1. Kim JK, Cho SW, Kang SS. Heterotopic ossification combined with infection in the hand: a case report. *J Korean Soc Surg Hand*. 2010;15:189-92.
2. Chen HC, Yang JY, Chuang SS, Huang CY, Yang SY. Heterotopic ossification in burns: our experience and literature reviews. *Burns*. 2009;35:857-62.
3. Kang SG, Lee JW, Ko JH, Seo DK, Choi JK, Jang YC. Treatment of heterotopic calcification with ulceration in burn scar. *J Korean Soc Plast Reconstr Surg*. 2010;37:415-20.
4. Choi HJ, Choi YD, Park NK, Kim YB. C-arm guided surgical excision of heterotopic calcification. *J Korean Soc Plast Reconstr Surg*. 2011;38:194-8.
5. Levi B, Jayakumar P, Giladi A, Jupiter JB, Ring DC, Kowalske K, et al. Risk factors for the development of heterotopic ossification in seriously burned adults: A national institute on disability, independent living and rehabilitation research burn model system database analysis. *J Trauma Acute Care Surg*. 2015;79:870-6.
6. Orchard GR, Paratz JD, Blot S, Roberts JA. Risk factors in hospitalized patients with burn injuries for developing heterotopic ossification: a retrospective analysis. *J Burn Care Res*. 2015;36:465-70.
7. Engber WD, Reynen P. Post-burn heterotopic ossification at the elbow. *Iowa Orthop J*. 1994;14:38-41.
8. Rhee BJ, Ko JH, Hur GY, Seo DK, Lee JW, Choi JK, et al. Clinical efficacy of pre-operative ¹⁸F-FDG-PET/CT in marjolin's ulcer. *J Korean Burn Soc*. 2013;16:50-3.
9. Kim BK, Shin HD, Kim KC, Kim JH. Heterotrophic ossification in the thenar eminence and the thumb: a case report. *J Korean Soc Surg Hand*. 2010;15:202-5.
10. Maender C, Sahajpal D, Wright TW. Treatment of heterotopic ossification of the elbow following burn injury: recommendations for surgical excision and perioperative prophylaxis using radiation therapy. *J Shoulder Elbow Surg*. 2010;19:1269-75.

손목의 화상 후 반흔 구축에 발생한 이소성 골화증

김재현 · 도수빈 · 정철훈

한림대학교 강동성심병원 성형외과학교실

화상과 관련하여 생기는 이소성 골화증은 잘 알려진 합병증 중 하나로 큰 관절들이나 하지를 주로 침범하지만 수부에 발생한 경우는 극히 드물다. 저자들은 손목 부위의 화상 후 반흔 구축에서 발생한 이소성 골화증을 광범위한 절제술 및 전층 피부이식술로 치유하였으며 재발 등의 합병증은 없었다. 궤양을 동반한 이소성 골화증은 보존적 치료로는 완치가 어려우므로 수술적 치료를 통한 골화 조직의 완전한 제거가 반드시 이루어져야 한다. 특히 수부에는 드물게 발생하므로 화상 반흔 부위 궤양이 보존적 치료에도 호전이 없을 경우 이소성 골화증을 먼저 감별해야 할 것이다.

색인단어: 이소성 골화증, 수부, 화상

접수일 2015년 11월 20일 **수정일** 1차: 2015년 12월 22일, 2차: 2015년 12월 26일

게재확정일 2016년 1월 17일

교신저자 김재현

서울시 강동구 길동 445 한림대학교

강동성심병원 성형외과학교실

TEL 02-2224-2246 **FAX** 02-488-0114

E-mail jaykay0219@naver.com