통풍과 동반한 국소형 색소성 용모 활액막염 1 예

정용욱 · 오명진 · 윤대영 · 홍영훈 · 이충기

영남대학교 의과대학 내과학교실

A Case of Gout with Nodular Pigmented Villonodular Synovitis

Yong-Wook Jung, Myung-Jin Oh, Dae-Young Yun, Young-Hoon Hong, Choong-Ki Lee

*Department of internal Medicine,
College of Medicine, Yeungnam University, Daegu, Korea*

—Abstract—

Pigmented villonodular synovitis (PVNS) is a benign proliferative disorder of uncertain etiology that affect synovial lined joints. This disease is an uncommon that usually afflicts the knee joint. Two types of villi are present in this disease, localized form is called 'nodular PVNS' and non localized form is 'diffuse PVNS'.

On microscopy, PVNS is characterized by the presence of hemosiderin-laden, multinucleated, giant cells. But plain radiograph in PVNS shows normal finding exclude effusion, so cannot help diagnosis of PVNS.

We experienced a case of a 59-years-old male patient who complained multiple arthralgia, swelling, limit of motion of Lt knee. We gave diagnosis of gout with PVNS by MRI and arthroscopic procedure. So we report this case with review of literature.

Key Words: Pigmented villonodular synovitis, Gout, Arthroscopy

서 론

색소 용모 결절성 활액막염은 병인이 밝혀지지 않은 증식성 질환으로 관절 활액낭에 결절성 구조를 형성하며, 결절의 내부에는 hemosiderin,

다핵성 거대세포가 침범하여 용모의 증식을 가져오는 질환이다. 연간 100만 명 당 1.8명의 발생률을 보이고, 대부분 하나의 관절에서만 발생하고, 주로 슬관절에 호발하며 고관절 족관절 순으로 발생하고,¹⁾ 분류는 이환정도에 따라

국소형과 미만형으로 나뉜다. 그러나, 단순 방사성 사진 상 정상소견을 보여 진단하고 발견하기에 어려움이 많은 것으로 알려져 있다.²⁾

저자들은 발열과 다발성 관절 통증, 관절 종창으로 입원한 급성 통풍성 관절염 환자에서 색소성 용모 결절성 활액막염이 동반되어 관절 경적 활액막 절제술을 시행한 병 1예를 보고하고자 한다.

증 례

59세 남자 환자가 내원 2개월 전부터 왼쪽 무릎 관절의 부종이 있어 오다가 최근 5일전부터 외측 무릎 관절, 양 발목 관절, 오른 제 2 중족지 관절의 관절 팽창, 통증, 열감이 있어 병원을 방문 하였다. 환자는 8년 전에 고혈압을 진단받고, 3년 전에는 불안정성 협심증으로 aspirin, angiotensin receptor antagonist, β -차단제를 복용중 이었고, 사회력상 매일 소주 한 병씩을 마셔왔다.

입원 시 환자는 발열과, 오한, 권태감, 관절 통, 관절 부종, 열감을 호소했으며 두통이나

호흡곤란, 기침, 가래, 복통, 설사, 배뇨곤란 등은 없었다.

신체검사 상 왼 무릎관절, 양 발목관절에 압통, 열감, 관절 팽창, 운동 제한 등이 있었고, 왼쪽 폐하의 악설음이 있었으나, 심잡음, 급속 호흡, 근위부 근육 허약등은 없었다.

혈액 검사에서 백혈구 13320 / μ L, 혈색소 14.5 / μ L, 혈소판 349000 / μ L, 호중구 81%, 림프구 14%, ESR 59mm/H, CRP 10.734 mg/dL 총 단백질 7 g/dL, 알부민 4.62 g/dL, AST/ALT 21/28 U/L, BUN/Cr 13.47/1.21 mg/dL, CPK 73 U/L 그리고 혈청요산은 내원 4년전 9.6 mg/dL, 3년전 10.53 mg/dL, 현재는 6.79 mg/dL, C3c 180.9 mg/dL, C4 58.2 mg/dL, 류마티스 인자는 12.2 IU/mL이었다. 그리고 혈청 항 핵 항체(ANA)는 음성이었고, 갑상선 기능검사, 소변 단백 검사등은 정상이었다. 2개월 전부터 왼 무릎 관절과 오른 2 중족지 관절의 종창이 있어 초음파 검사를 시행하였다.

초음파 검사 상 왼무릎의 활액막의 용모의 종대와 삼출액이, 왼 발목과 발등의 표면적 연부 조직 부종이, 오른 2 중족지에선 발등을 따

Fig. 1. Left knee sono shows effusion and proliferated synovial villi, and 2nd metatarsophalangeal joint sono shows a arthritis with bone destruction along the dorsum.

Fig. 2. Follow up left Knee sono shows a marked hyperemic villonodular synovial proliferation and fluid.

라 골 파괴성의 관절 염증이 관찰되었다(Fig. 1). 관절액 천자상 요산 결정은 관찰되지 않았고, 백혈구 32000 / μ L, 적혈구 1500 / μ L, 호중구 98%로 항생제와 colchicine을 투여 하였다. 치료 14일째 발열, 오한, 관절통의 증상은 많이 호전되었고, 환자에게서 시행한 관절액 세균 배양 검사는 음성으로 나왔다.

혈액 검사 상 백혈구 7010 / μ L, 혈색소 13.5 / μ L, 혈소판 490000 / μ L, 호중구 67%, 림프구 20%, ESR 62 mm/H CRP 1.937 mg/dL 혈청 요산 7.14 mg/dL의 결과를 보였다. 그러나 통

증 등의 증상은 호전되었으나, 왼 무릎 관절의 종창이 남아 있어 시행한 왼쪽 무릎 초음파 검사 상 삼출액과 증열된 용모 결정성의 활액막의 증식이 관찰되었다(Fig. 2). 경구 항생제와 colchicine 투여하면서 시행한 왼무릎 자기 공명 영상에서 저명한 활액막 조직의 용모성 증식과, 삼출액, 색소 침착이 관찰되어(Fig. 3) 색소 결정성 용모막염을 의심하고 확진과 치료를 위해 관절경적 조직검사를 시행하였다. 관절경적 소견상 반월상 연골과, 전방, 후방 십자 인대는 손상되지 않았고, 활액막의 증식(Fig. 4A)과 유리체

Fig. 3. Left knee MRI shows marked proliferation of synovial tissue and effusion, and synovitis with hemosiderin pigmentation.

Fig. 4. Arthroscope finding shows synovial hypertrophy and loose body. But meniscus, ant cruciate ligament, post cruciate ligament shows intact. A, synovium hypertrophy. B, loose body.

가 관찰되었고(Fig. 4B), 활액막 절제술과 유리체 제거술을 시행하였다. 술 후 시행한 냉동 조직 검사의 현미경적 소견상 활액막의 비후와 증식 임파구의 침습, 섬유소의 침착(Fig. 5A) 그리고, 비정형적 조직 세포의 침윤이 보였고(Fig. 5B), 유리체는 섬유소의 침착이 보였다(Fig. 5C). 통풍과 동반된 국소형 색소 용모성 활액막염으로 확진하고 관절경적 활액막 절제술 후 외래에서 추적 관찰 중이다.

색소 용모 결절성 활액막염은 관절, 점액낭, 건초의 활액막에서 기원하는 증식성질환으로 연간 100만 명 당 1.8명 정도로 발생하는 매우 드문 질환이다.¹⁾ 그러나 아직까지 정확한 원인은 밝혀 지지 않았다. 추정되는 원인으로 4가지 정도의 가설이 있는데, 지질대사의 장애, 관절내 혈액과 혈액 산출물에 대한 반응, 밝혀 지지 않은 비 외상성 자극에 대한 염증 반응, 활액막과 관절내 혈관의 양성 종양 설 등이 있다.³⁾

고 찰

임상적인 형태도 동통성 결절이나 종괴에서

Fig. 5. Arthroscopic biopsy was done. First specimen (A) consists of several fragments of yellow soft tissue, second specimen consists of one pieces of soft tissue. Microscopic finding of first specimen is synovial hypertrophy, synovial hyperplasia, focal lymphocyte infiltration, and fibrinoid material. And second specimen (B) is dissolved urate crystal surrounded by reactive fibroblast. And surgical biopsy (C) was done, and gross finding is light brown soft tissue labeled Lt Knee meniscus labeled, measuring 3.0 * 0.5 cm. And Microscopic finding is fibrinoid material.

확산형의 동통성 강직 관절의 형태에 이르기까지 다양하며, 대부분 하나의 관절에만 발생하고, 주로 슬관절에 호발하며 다음으로 고관절, 족관절 순으로 호발한다. 슬관절에서 색소 용모 결정성 활액막염은 관절의 활액막의 이환 정도에 따라 국소형과 미만형으로 분류한다. 임상적으로 국소형은 반월상 연골병변이나 유리체등의 슬내장과 유사한 양상을 보이며 미만형은 관절내 활액의 증가를 보이는 만성 활액막염의 형태로 나타난다.¹⁾

관절 액 천자상 혈액성의 혹은 짙은 갈색의 점도가 떨어지고 응고되지 않는 관절액을 보인다. 방사선 사진 상 감별은 어려우나 이완된 관절은 관절액의 증가에 따른 관절낭의 팽윤 및 퇴행성 관절 변화와 관절 주위 골 파괴의 양상을 보이기도 한다. 자기 공명영상에서 질환을 진단하는데 유용한 검사로 활액막의 비후와 혈색소의 침착이 특징적으로 관찰된다. T1, T2 강조영상에서 저 신호강도를 보이며 관절액이 증가한 양상을 보인다.⁴⁾

슬관절에 발생한 용모 결정성 활액막의 치료 방법으로, 한 부위 관절 혹은 연부조직의 침범 소견이 있을 경우에는 이환된 조직의 절제술로 관절 내에 생긴 경우는 관절경하 활액막 절제술, 활액막 절제 및 관절 성형술, 방사선 치료, 관절 고정술로 치료한다고 하였다.⁴⁾

수술 후 시행한 조직 검사에선 섬유성 기질, 혈색소 침착, 조직구 다핵 거대세포의 침윤, 모세혈관의 발달 등의 소견을 보인다.¹⁾

vigorita⁵⁾는 아스피린, 스테로이드로 치료중인 61세 흑인 남자 환자에서 활액막 절제술후 색소 용모 결정성 활액막염이 동반된 예와, 양측 고관절의 대퇴골두 괴사로 전 고관절 성형술후 색소 용모 결정성 활액막염이 동반된 예

를 보고했고, Mirra J 등⁶⁾은 골의 Pajets병과 동반된 색소 용모 활액막염을 보고했으나, 아직까지 통풍과 동반된 색소 용모 활액막 염은 보고된 예는 없다.

결론적으로 우리는 이 환자의 예에서 급성 통풍성 관절염으로 치료 중 임상적 증상의 호전이 있더라도 관절의 부종이 지속적으로 있을 시 자기 공명 영상 등의 추가적인 검사가 요구된다는 점에 주목 하여야 하며, 추적 관찰에서 색소성 용모 활액막 염의 재발 여부에 대해 관찰이 필요 하다.

References

1. Nam yong choi, M.D., Hyung KooK cheong, M.D., Hae Seok Koh, M.D. Chang Whan Han, M.D., Sung Jin Park, M.D., Suk Ku Han, M. D. at al. Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis of the Knee. J of Korean Orthop 2006;41(6): 994-1001.
2. Hyun Kee chung, M.D., Choong Hyeok Choi, M.D., Keyong Jin Choi, M.D., Seong Pil Lee, M.D. Localized Pigmented Villonodular synovitis of the posterior Compartment of the knee. J of Korean Orthop. Assoc. 1998;Feb 33(1):211-5.
3. Goldman AB, Dicarlo EF. Pigmented Villonodular Synovitis Diagnosis and Differential Disgnosis. J of Radiologic Clinics of North America 1988; Nov:26(6) 1327-47.
4. Deuk-Soo Hwang, M.D., Chang-Hwan Lee, M.D., Jae-Hoon Yang, M.D., Tae Hwan Kang, M.D. Pigmented Villonodular Synovitis of the Ankle Joint. J of Korean Orthop 2006;41: 905-910.
5. Vigorita VJ. Pigmented Villonodular Synovitis-like Lesion in Association with Rare Cases of

- Rheumatoid arthritis, Osteonecrosis, and Advanced Degenerative Joint Disease. Clin. Orthop Related Res 1984 Mar; (183):115-21.
6. Mirra JM, Fionear man G et al. Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis in Association with Pajet's Disease of Bone. Clin Orthop Related Res 1980 Jun; (149): 305-9.