

심부정맥 혈전증으로 오인된 급속 파괴형 고관절증 1예

- 증례 보고 -

연세대학교 의과대학 재활의학교실 및 근육병재활연구소

홍지성 · 정철오 · 정강재 · 김동현 · 최정화 · 박윤길

A Case of Rapid Destructive Coxarthrosis Misdiagnosed as Deep Vein Thrombosis

- A Case Report -

Ji Seong Hong, M.D., Chul Oh Jung, M.D., Kang Jae Jung, M.D., Dong Hyun Kim, M.D., Jung Hwa Choi, M.D. and Yoon-Ghil Park, M.D.

Department of Rehabilitation Medicine and Rehabilitation Institute of Muscular Disease, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

Rapidly destructive coxarthrosis of hip joint (RDA) is a rare condition characterized by rapid joint degeneration and destruction similar to findings of infection, osteonecrosis, or rheumatoid arthritis but without a definitive diagnosis. We report a case of RDA mis-diagnosed as deep vein thrombosis (DVT) in a 69-year-old male patient. He complained of left hip joint pain which became progressively worse. Moreover, within 2 months after onset of pain, joint space narrowing and destruction of femur head with swelling was rapidly progressed. Initially, He was diagnosed clinically as DVT related avascular necrosis (AVN). However, there was no evidence of DVT on computerized tomography. He was treated by total hip replacement surgery. According to the literature and experience from this case, total hip arthroplasty at early stage of disease could be utilized as a treatment of choice due to the severity of the symptoms and the natural history. (*Clinical Pain* 2011;10:126-130)

Key Words: Rapidly destructive coxarthrosis, Deep vein thrombosis

서 론

급속 파괴형 고관절증(Rapid Destructive Coxarthrosis)

접수일: 2011년 7월 30일, 게재승인일: 2011년 11월 9일

책임저자: 박윤길, 서울시 강남구 도곡동 146-92

☎ 135-720, 강남세브란스병원 재활의학과

Tel: 02-2019-3493, Fax: 02-3463-7585

E-mail: drtlc@yuhs.ac

은 1970년 Postel과 Kerboul 등¹⁾에 의해 1970년에 처음 소개되었으며, 주로 60대 이상의 노년기 여성에서 편측성으로 발생하고, 임상적으로는 약 1년 이내의 고관절부의 통증과 방사선학적으로 급속하게 진행되는 대퇴골두의 파괴를 특징으로 하는 매우 드문 질환이다.²⁾ 본 질환은 결정 유발성 관절염(crystal induced arthropathy), 약물 유발성 관절염증(Drug induced arthropathy), 무혈성 골괴사(Avascular osteonecrosis), 연골하 부전 골절, 패혈성 관절염(Septic arthritis), 신경병증(Neuropathy), 류마티스 관절(Rheumatic arthritis) 등과 관련되어 발생할 수 있으나 현재까지 정확한 원인은 알려지지 않은 상태이다.³⁻⁶⁾ 본 질환은 다른 관절염이나 이형성증, 감염 후유증 등의 보존적 치료를 하거나 경과 관찰하다 수술적 치료를 고려 하는 유사한 증상을 보이는 질환과 달리 인공 고관절 치환술을 시행하는 것이 반드시 그리고 조기에 필요하며, 수술 이후 보행이 가능해지며 통증이 감소되는 등의 수술적 치료의 예후도 좋으므로, 치료를 위하여 조기에 정확한 감별 진단이 필요하다.^{3,7)} 국내에서는 대퇴골두 무혈성 골괴사가 급속 파괴형 고관절증의 원인 중 하나일 수 있다는 보고가 있었으며,⁸⁾ Yun 등⁹⁾은 류마티스 고관절염과 매우 유사한 검사 소견을 보였던 급속 파괴형 고관절증 3예에 대한 증례를 보고하였고 Min 등¹⁰⁾은 고령의 여자 환자에게 연골하 부전 골절과 동반된 급속 파괴형 고관절증에 관한 증례를 보고 하였으며 마찬가지로 2008년 Watarai 등¹¹⁾, 2005년 Niimi 등¹²⁾도 고령의 노인에게서 단기간 만에 연골하 부전 골절이 동반되는 급속 파괴형 고관절증을 보고하였다. 최근 본 저자들은 좌측 고관절 통증 발생 2개월 만에 좌측 하지의 부종과 통증을 주소로 입원하여 방사선학적 검사상 급속한 대퇴골두 파괴 소견을 보였던 급속 파괴형 고관절증의 1예를 경험하였기에 이의 임상증상, 진단 및 치료과정을 보고하는 바이다.

증 례

69세 남자환자로 내원 2개월 전부터 발생한 좌측 고관절 부위의 동통으로 진통소염제 등의 약물 치료를 시행하였으나 증상의 호전이 없었고, 내원 2주 전부터 악화된 좌측 하지 전체의 부종과 통증 그리고 보행 불능을 주소로 외래

Table 1. Results of Blood Test at Admission

	Results	References
Hemoglobin (g/dl)	11.3	13~17
WBC (/mm ³)	8,940	4,000~10,800
PLT (/mm ³)	304,000	150,000~400,000
Glucose (mg/dl)	104	75~110
BUN (mg/dl)	4.4	7.0~21.0
Cr (mg/dl)	0.8	0.8~1.3
Total protein (g/dl)	5.5	6.7~8.0
Albumin (g/dl)	3.4	3.4~5.3
T. bilirubin (mg/dl)	0.7	0.2~1.3
AST (OT) (IU/L)	41	13~36
ALT (PT) (IU/L)	32	11~46
Na (mmol/L)	122	138~146
K (mmol/L)	4	4
Ca (mmol/L)	8.0	8.6~9.9
Phosphate (mg/dl)	3.6	2.8~4.5
Total cholesterol (mg/dl)	151	139~230
ESR (mm/hr)	11	0~15
Antistreptolysin O (IU/ml)	28.0	0~243.0
Rheumatoid Factor (IU/ml)	6.3	0~33.0
CRP (mg/L)	87.2	0.1~6.0
D-dimer (ng/ml)	6.5	0~0.4

방문하여 내원 당일 시행한 단순 방사선 검사에서 좌측 고관절의 파괴형 변화 및 전위 소견을 보여 입원하였다. 과거력상 고혈압으로 외부병원에서 약물 조절 중인 것 이외 특이 사항 없었고 가족력상에도 특이 사항 관찰되지 않았다. 입원 당일 환자는 만성 병색을 보였으며 혈압은 114/64 mmHg, 맥박수 77회/분, 호흡수 20회/분, 체온 36.2°C이었다. 두경부, 흉부, 그리고 복부 진찰 소견상 특이 소견 없었으며 좌측 하지의 부종과 고관절부터 발목까지 전체적인 동통 및 부종이 관찰되었다. 부종은 양측 하지에서 우측과 좌측 둘레 차이가 36.5 : 46 cm (무릎관절의 슬개골 상극 10 cm상방), 30 : 34 cm (무릎관절의 슬개골 하극 10 cm 하방)로 좌측 하지부종 소견을 보였다. 또한 좌측 고관절은 통증이 심하여 능동적 및 수동적 운동범위를 측정할 수 없었으며 통증으로 인해 보행이 불가능 하였다. 입원 당일 말초 혈액 검사상 혈색소 11.3 g/dl, 백혈구 8,940/mm³, 혈소판 304,000/mm³, 일반 화학 검사상 공복시 혈당 104 mg/dl, 혈중요소질소 4.4 mg/dl, 크레아티닌 0.8 mg/dl, 총 단백질 5.5 g/dl (알부민 3.4 g/dl), 총 빌리루빈 0.7 mg/dl, 알라닌아미노기전이효소/아스파르트산염아미노기전이효소(ALT/AST) 41/32 IU/L, 알칼리성 인산분해효소 135 IU/L, 나트륨 122 mEq/L, 칼륨 4.0 mEq/L, 칼슘 8.0 mg/dl, 인 3.6 mg/dl, 총 콜레스테롤 151 mg/dl, 항트립신 O 28.0 IU/ml, 류마티오이드 인자 6.3 IU/ml 이었으며 소변 검사는 정상범주이었다(Table 1). 적혈구

침강 속도는 11 mm/hr, C 반응 단백질은 87.2 mg/L, D-dimer 6.5 mcg/ml으로 알라닌아미노기전이효소, 알칼리성 인산분해효소 및 C반응 단백질, D-dimer 수치가 기준치보다 증가 소견을 보였다. 입원 당일 고관절 단순 방사선 사진에서 좌측 대퇴 골두 및 경부에 비정상적인 골 파괴성 변화가 관찰된 반면 우측 대퇴 골두는 정상이었다(Fig. 1). 좌측 하지부종이 있어 좌측 심부 정맥 혈전증을 의심하여 내원 2일째 시행한 컴퓨터 단층촬영 소견에는 심부정맥 혈전증을 의심할 만한 소견은 보이지 않았으며 좌측 대퇴 골두가 용해되어 있었고 고관절 주위에 삼출물이 동반되어 있었다(Fig. 2). 또한 근육의 비정형성 골화성 근염이 동반된 급속 파괴형 고관절증이 의심 되었다. 더불어 시행한 전신 골스캔검사(whole body bone scan) 상에서도 좌측 고관절 부위로 대퇴골을 비롯한 주위 근육 및 연부조직에 uptake가 증가된 소견을 보였다(Fig. 2). 내원 4일째, 하지의 부종 및 동통이 지속되었고 자기공명영상 검사상 좌측 고관절 삼출물을 동반한 대퇴 골두의 골 용해 및 주위 활막염이 관찰되었고, 이로 인해 해당 부위 주위의 근육들의 변형이 발생하여 급속 파괴형 고관절증으로 진단되었다(Fig. 2). 이후 환자는 입원 1주째 좌측 인공 고관절 치환술을 시행 받았으며 이후 수술 후 2일째 2차례, 이후에도 3차례 이상의 재발성 고관절 탈구가 발생하였고 이후 수술 후 약 2개월째 근위부 인공 관절 주위 골절로 내고정술 시행하였고 이후 대퇴골 중간 부위, 인공관절 주위 골절 등의 3차례 골절로 내고정술 시행후 퇴원하였다.

고 찰

본 증례는 특발성 좌측 고관절 동통 발생 이후 부종을 동반한 급속하게 진행된 동통 및 관절가동범위 및 보행 장애로 내원하여 초기 진단시 심부정맥 혈전증이 의심되었으나 방사선 검사상 급속 파괴형 고관절증으로 진단된 사례이다. 급속 파괴형 고관절증에 대해서는 1970년 Postel과 Kerboul이 한쪽 고관절의 심한 통증을 호소하며 여성에게 빈번하게 발생하고 고관절의 파괴 속도가 6~12개월 내에 급속하게 일어나는 질환에 대해서 급속 파괴형 고관절증으로 명명하였다.¹⁾ 이의 원인에 대해서는 분명하게 알려져 있지 않으며, 대부분 특발성으로 발생하는 것으로 알려져 있지만 여러 저자들에 의해 다양한 연관이론들이 제시되고 있다. Rosenberg 등²⁾은 고관절 괴사가 편측성으로 나타나며 60세 이상의 중년 여성에게서 흔히 발생하고 편측성으로 급속히 진행되는 보행장애 및 고관절 동통 등의 특징적인 임상증상을 동반하는 퇴행성 관절염의 아형으로 규정하였고 그 외에도 serum type I collagen C-telopeptide 또는 urinary type II collagen helical (Helix-II)의 증가를 동반 하는

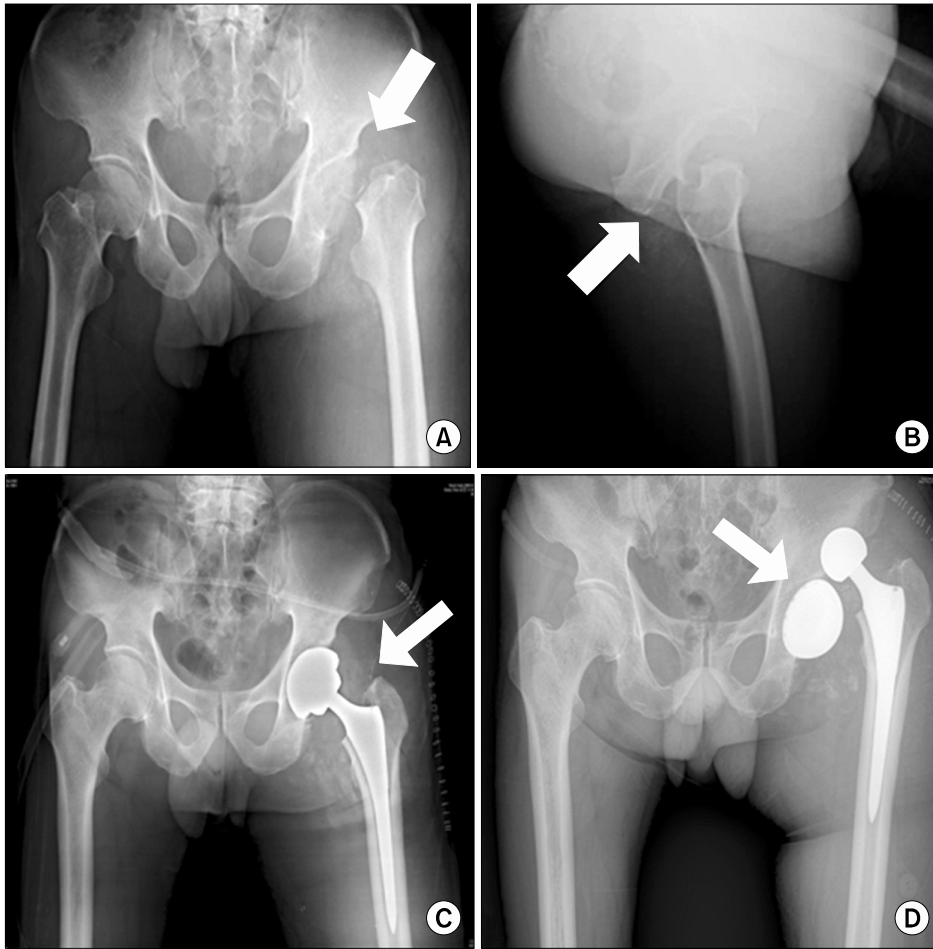


Fig. 1. X-ray of the hip joint. Anterior (A) and axial (B) views of abnormal destructive bone change (arrow) at left femoral head. Upward displacement of remained left proximal femur. (C) Anterior image of postoperative status (arrow) of left femur. (D) Anterior image of dislocation (arrow) of left femur.

류마티스 관절염, 관절내 hydroxyapatite나 pyrophosphate crystal의 침착이나 indomethacin 등의 진통소염제 사용, 쿠싱 증후군과 연관된 골다공증, 과체중 등이 관련요소로 제기되었다.¹³⁻¹⁵⁾ 이러한 급속 파괴형 고관절증의 기전으로는 matrix metalloproteinases (MMPs), interleukin-1 (IL-1), prostaglandins (PGs)와 다른 cytokine 등에 의해 관절 파괴가 유발되고, 그 밖에 대퇴골두의 연골하 부전 골절 같은 기계적 요인에 의해서도 관절 파괴에 영향을 주는 것으로 알려져 있다. 급속 파괴형 고관절증의 경우 대퇴골 연골하 골절과 골괴사 및 다른 질환들을 감별하는데 방사선 검사 중 자기공명영상 검사가 유용하다고 알려져 있으며 대퇴골 골두와 비구에서 T1 강조 영상에서 골수의 부종 소견과 함께 낭포 성상의 연골하 결손 등의 소견이 보이는 것으로 알려져 있다. 이와 더불어 조직학적 검사상 다핵 거핵세포 및 육아종성 병변 등으로 다른 질환과 감별할 수 있는 점으로 알려져 있다. 본 증례에서는 병력상 국소 및 전신 발열이나 발적 양상이 없었고 고관절 부위에 상처나 수술 흔 등에서 비롯되는 세균성 고관절염을 배제할 수 있었으며, 혈액

학적 검사를 통해 다른 류마티스 관절염 등과 관련된 요소를 배제할 수 있었다. 또한 고관절 동통 외 신경학적 증상이 없어 신경병성 고관절증과 감별이 가능했다. 하지만 60세 이상의 남성, 또한 극심한 통증을 감소시키기 위한 비스테로이드성 항염증 제제 등의 진통소염제를 사용하였던 병력 등이 고관절 골절 및 급속 파괴형 고관절증의 진행을 가속시키는 악화요인으로 생각할 수 있었다.

심부정맥 혈전증은 임상 소견으로 해당 부위의 온기 및 압통, 호프만 징후 등을 보이고 검사상 소견상 D-dimer 증가와 방사선학 검사상 정맥 scanning과 도플러 초음파 혈류 검사에서 분명한 하지 혈류 장애가 보이는 것이 특징이다.^{16,17)} 류마티스 관절염은 급속한 골파괴 소견과 혈액학적 이상 및 다른 관절의 침범 등의 소견으로 감별할 수 있다.¹⁸⁾ 세균성 관절염은 임상 소견으로 발열과 열감 등이 존재하고, 혈액검사상 염증 수치의 증가를 보이며, 방사선학 검사상 경계가 불분명한 골파괴와 이차적인 골경화를 수반한다. 따라서 혈액검사와 방사선 검사 소견에서 이들 질환의 가능성을 배제할 수 있었다. 또한 단측성으로 침범한 관절

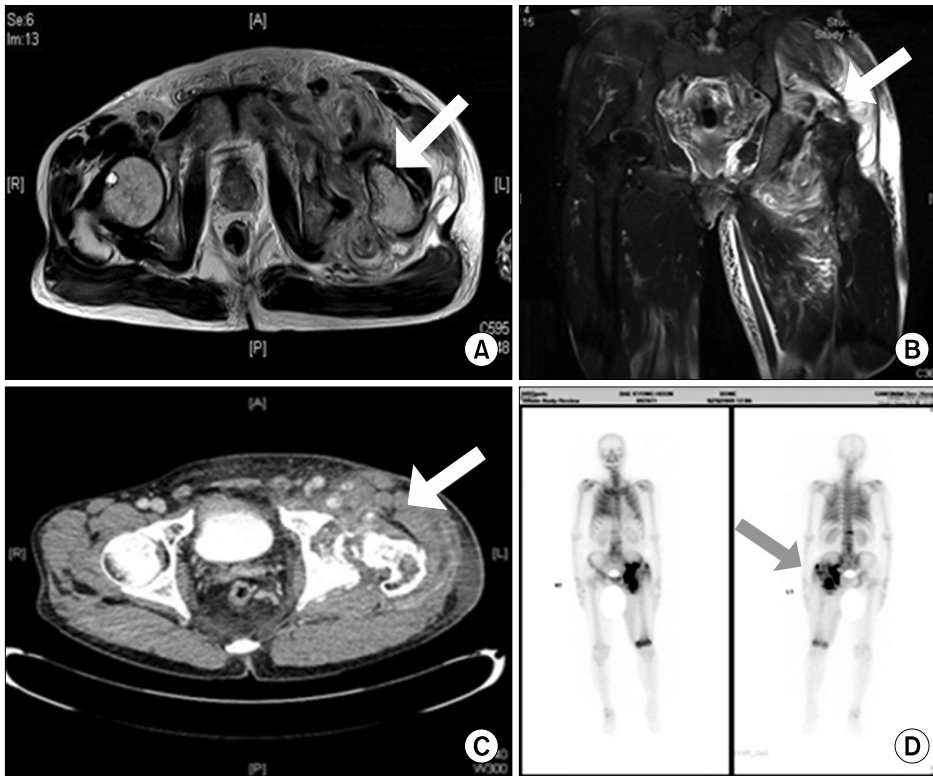


Fig. 2. MRI study showed abnormal signal change (arrow) at left femoral head with joint effusion (A), synovitis including extensive signal alteration (arrow) of hip abductors, external rotators, adductor muscles (B). Computerized tomography showed resorption (arrow) of left femoral head with hip joint effusion (C). Increased uptake (arrow) on left femur in whole body bone scan (D).

을 비롯하여 자기 공명영상에서 대퇴골두 전체를 침범하는 괴사 및 대퇴골의 부종, 비구 주위의 골수 부종, 관절내 삼출액 등은 전형적인 대퇴골두 무혈성 괴사와는 구별 될 수 있는 소견으로 유의하여야 할 소견이라고 할 수 있다.

이외에도 류마티스 관절염을 앓고 있던 환자가 급속 파괴형 고관절증을 진단받으면서 동측의 요근 확장과 장요근의 윤활낭염이 발생하는 등의 보고가 있었고,¹⁹⁾ 2005년에 Yamakawa 등²⁰⁾이 급속 파괴형 고관절증을 진단 받은 환자에게서 조직병리학적인 검사를 시행하였을 때 고관절 내로 과혈관성 및 과골세포의 이상 증식이 보여 급속 파괴형 고관절증의 골 용해와 파괴에 대한 논의가 있었다. 또한 이 질환을 진단 받고 나서 수술적 치료를 하기 전 스테로이드 주사를 고관절 주위에 맞았을 때 수술적 치료에 어떤 예후를 보이는가에 대해서도 보고가 있었으나 당시 특별한 예후에 변화는 없었다.²¹⁾

본 증례에서는 좌측 고관절 동통 발생 이후 진통소염제 등으로 치료 하였으나 증상의 호전 없이 증상 발현 2개월 만에 보행 불능을 동반한 동통 및 관절가동범위 악화와 단순 방사선 사진과 컴퓨터 단층촬영, 자기 공명 영상 검사상 좌측 대퇴 골두의 급속한 골파괴로 급속 파괴형 고관절증으로 진단받고 고관절 치환술을 시행하였다. 특히 이전 관련 논문에서 보고되지 않았던 좌측 하지의 심한 부종과 관절 운동장애로 인한 보행장애는 임상적 경과상 심부정맥

혈전증을 시사하는 소견으로 생각될 수 있었으나 이에 신속한 심부정맥 혈전증 컴퓨터 촬영 및 혈액검사로 이를 배제할 수 있었고 해당 관절 부위의 적절한 수술적 치료를 시행 할 수 있었다. 본 증례에서는 자기공명영상 검사 후 급속한 수술적 치료가 필요한 상태로 확진을 위한 조직병리학적인 검사는 시행하지 않았다.

또한 본 증례에 있어 수술적 치료 후 2차례의 고관절 탈구 및 3차례의 골절이 발생하였는데 다른 질환과 급속 파괴형 고관절증에 있어 수술 후 고관절 탈구 및 골절에 대해서는 2009년 Kuo 등²²⁾이 급속 파괴형 고관절증을 진단받고 인공 고관절 전치환술을 받은 8명의 환자에게서 6년 뒤 추적관찰 하였을 때 1명에서 수술부위의 인공 고관절 해리가 발견되었던 보고 외에는 알려진 바가 없어 본 환자의 경우 탈구가 발생한 원인에 대해서는 유추하기 어려우나 상기 질환에 대해 고관절 탈구를 염두에 두고 보조기 착용 및 관절 보호 등으로 예방할 수 있도록 해야 할 것으로 생각된다.

결론

고령의 환자가 고관절의 통증과 하지 전체의 부종을 주소로 내원했을 때 단순히 고관절 무혈성 괴사, 심부정맥 혈전증뿐 아니라 연골하 부전 골절의 가능성을 염두에 두고 적극적인 검사와 지속적인 관찰을 통해 급속 파괴형 고관

절증로 진단되지 않도록 하여야 하며 급속 파괴형 고관절 증의 경우 조기에 수술적 치료와 수술적 치료 후 보조기 착용을 비롯한 관절의 조기 고정을 통해 관절의 파괴를 막고 회복을 촉진하도록 하여야 하겠다.

참 고 문 헌

1. Postel M, Kerboul M. Total prosthetic replacement in rapidly destructive arthrosis of the hip joint. *Clin Orthop Relat Res* 1970;72:138-44.
2. Rosenberg ZS, Shankman S, Steiner G, Kastenbaum D, Norman A, Lazansky M. Rapid destructive osteoarthritis: clinical, radiographic, and pathologic features. *Radiology* 1992;182:213.
3. McCarty DJ Jr, Haskin ME. The roentgenographic aspects of pseudogout (articular chondrocalcinosis). An analysis of 20 cases. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1963;90:1248-57.
4. Solomon L. Drug-induced arthropathy and necrosis of the femoral head. *J Bone Joint Surg Br* 1973;55:246-61.
5. Resnick D, Niwayama G. Osteomyelitis, septic arthritis, and soft tissue infection: organisms. *Diagnosis of Bone and Joint Disorders* 1981;4:2467-74.
6. Norman A, Robbins H, Milgram JE. The acute neuropathic arthropathy--a rapid, severely disorganizing form of arthritis. *Radiology* 1968;90:1159.
7. Charrois O, Kahwaji A, Rhami M, Inoue K, Courpied J. Outcome after total hip arthroplasty performed for rapidly progressive hip destruction. *Revue de chirurgie orthopedique et reparatrice de l'appareil moteur* 2002;88:236.
8. Lee KH, Sung MS, Kim HM, Kim YS, Choi MG, Jeong CH, et al. MR Imaging of Osteonecrosis of the Femoral Head with Rapidly Destructive Coxarthrosis. *Journal of the Korean Orthopaedic Association* 2003;38:105-10.
9. Yun HH, Yoon JR, Lim DS, Yi JW. Rapidly destructive coxarthrosis in patients with rheumatoid arthritis-report on 3 cases. *The Journal of the Korean Hip Society* 2010;22:234-40.
10. Min JK, Kim JA, Sung MS. A case of rapid destruction of hip joint associated with a subchondral insufficiency fracture. *The Journal of the Korean Rheumatism Association* 2002;9:141-5.
11. Watarai K, Taneda H, Higano M, Hirasawa Y, Oda H. Rapidly destructive arthrosis of the hip joint after insufficiency fracture of the acetabulum. *J Orthop Sci* 2008;13:561-5.
12. Niimi R, Hasegawa M, Sudo A, Uchida A. Rapidly destructive coxopathy after subchondral insufficiency fracture of the femoral head. *Archives of Orthopaedic and Trauma Surgery* 2005;125:410-3.
13. Garnero P, Conrozier T, Christgau S, Mathieu P, Delmas P, Vignon E. Urinary type II collagen C-telopeptide levels are increased in patients with rapidly destructive hip osteoarthritis. *Ann Rheum Dis* 2003;62:939.
14. Garnero P, Charni N, Juillet F, Conrozier T, Vignon E. Increased urinary type II collagen helical and C telopeptide levels are independently associated with a rapidly destructive hip osteoarthritis. *Ann Rheum Dis* 2006;65:1639-44.
15. Boutry N, Paul C, Leroy X, Fredoux D, Migaud H, Cotten A. Rapidly destructive osteoarthritis of the hip: MR imaging findings. *American Journal of Roentgenology* 2002;179:657.
16. Mathewson M. A Homan's sign is an effective method of diagnosing thrombophlebitis in bedridden patients. *Critical Care Nurse* 1983;3:64.
17. Line BR. Pathophysiology and diagnosis of deep venous thrombosis. Elsevier; 2001. p.90-101.
18. O'Dell JR, Smolen JS, Aletaha D, Robinson DR, St. Clair EW. Rheumatoid arthritis. *A Clinician's Pearls and Myths in Rheumatology* 2010;32(2):1-13.
19. Matsumoto T, Juji T, Mori T. Enlarged psoas muscle and iliopsoas bursitis associated with a rapidly destructive hip in a patient with rheumatoid arthritis. *Mod Rheumatol* 2006;16:52-4.
20. Yamakawa T, Sudo A, Tanaka M, Uchida A. Microvascular density of rapidly destructive arthropathy of the hip joint. *J Orthop Surg (Hong Kong)* 2005;13:40-5.
21. Villoutreix C, Pham T, Tubach F, Dougados M, Ayrat X. Intraarticular glucocorticoid injections in rapidly destructive hip osteoarthritis. *Joint Bone Spine* 2006;73:66-71.
22. Kuo A, Ezzet KA, Patil S, Colwell CW Jr. Total hip arthroplasty in rapidly destructive osteoarthritis of the hip: a case series. *HSS J* 2009;5:117-9.