

## Dupuytren 구축의 임상 및 전자현미경학적 관찰\*

계명대학교 의과대학 정형외과학교실

### 유 경 재·강 창 수

#### =Abstract=

#### Clinical and electron microscopic observation of Dupuytren's contracture

Kyung Jae Yoo, MD; Chang Soo Kang, MD

Department of Orthopaedic Surgery, Keimyung University  
School of Medicine, Taegu, Korea

Dupuytren's contracture is characterized by progressive fibroplasia and contracture of palmar fascia with resultant deformity of hands and fingers. Recently it has been shown that the cellular element, called myofibroblast, contributes significantly to the process of contracture. Among the 6 patients we have seen during the last few years, there were a total of 9 hands with Dupuytren's contracture. Seven of these were treated by a partial fasciectomy or by a dermofasciectomy with a full thickness skin graft and the results of these two procedure were compared.

The results of dermofasciectomy with full thickness skin graft are better than those of partial fasciectomy, and no local recurrences in the operative site after dermofasciectomy with full thickness skin graft.

Electron microscopic studies were done to find myofibroblasts which have characteristics of both fibroblasts and smooth muscle cells in 3 of 6 patients and myofibroblasts were found in 2 of them.

### 서 론

Dupuytren 구축은 1610년 Plater에 의해 처음 보고된 이후, 1832년 Baron, Guillaume 및 Dupuytren 등이 임상적, 수술적 및 사체 검안 소견을 통해 정확히 기술한 질환으로 주로 수장부, 수지부 등의 근막에 증식성 섬유 형성으로 nodule, fibrotic cord 등을 형성하고, 증수지 판절이나 지판절에 굴곡 변형을 초래하는 질환이다.

1971년 Gabbiani에 의해 육아조직에서 myofibroblast 가 발견된 이후 Gabbiani, Majno, Huston 등에 의해 Dupuytren 구축 환자의 palmar nodule 에서도 myofibroblast 가 발견되었다고 하며, 그후

여러 학자들의 연구에 의해 myofibroblast 가 구축의 원인과 깊은 관계가 있는것으로 규명되었다<sup>1-4)</sup>.

계명의대 정형외과학 교실에서는 1979년부터 1983년까지 이 질환 6례 9수를 경험하였으며, 6례 7수를 수술하여 그중 3례에서는 전자현미경으로 fibroblast 와 smooth muscle cell의 특징을 동시에 가지는 myofibroblast 의 존재유무를 확인하기 위하여 이 연구를 실시하였다.

### 재료 및 방법

1979년부터 1983년까지 6명의 Dupuytren 구축 환자 중 양측 3례, 우측 2례, 좌측 1례로서 총 6례 9수였으며 그 중 6례 7수에서 dermofasciectomy with

\* 본 논문은 1986년도 계명대학교 윤종연구비 및 동산의료원 조사연구비로 이루어졌다.

FTSG, partial fasciectomy 등을 시행하였고 그리고 그 결과를 1986년 8월까지 관찰하였다. 전자 현미경이 활용되기 전에는 광학 현미경으로 조사하였으며 전자 현미경이 도입 가동 이후부터는 전자 현미경적 검사를 병행하였다.

## 결과 및 성적

### (증례 1)

남자 66세로 약 4년전부터 좌측 수장부에 소결절이 나타난 후 점차 환지에 굽곡 수축이 나타나 이를 주소로 내원하였다.

#### 이학적 소견 :

좌수 : 환지 부위의 수장부에 단단한 소결절(nodule)과 fibrotic cord를 보이고 있었으며, 중수지 관절에 약 30°, 근위지 관절에 약 90°의 굽곡 구축이 있었으며 침범부의 피부가 피하 복소와 유착되어 있었다(Fig. 1).

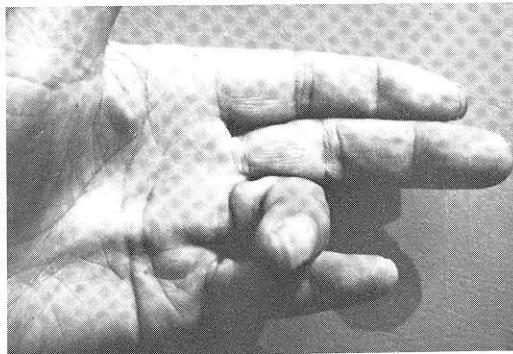


Fig. 1. Left hand of a patient with Dupuytren's contracture, showing contracture of M-P and PIP joint of left ring finger and fibrotic cord in the palm. Preoperative photograph of case I.

우수 ; 무지, 환지부의 수장부에 경한 fibrotic cord가 있으며 수지의 굽곡 변형은 없었다.

#### 수술 및 현미경적 검사

좌수에 대해 dermofasciectomy with full thickness skin graft를 시행하였고(Fig. 2) 우수는 관찰하였다. 가검물의 광학 현미경 소견상 fibroblast와 collagen fiber가 보였으며(Fig. 3) 전자 현미경 검사에서는 myofibroblast는 보이지 않았고, 성숙된 fibroblast가 보였다(Fig. 4).

### (증례 2)

57세 남자 환자로 약 1년전부터 우측 환지의 중수지 관절의 30° 굽곡 구축 및 수장부에 fibrotic cord,



Fig. 2. Postoperative photography of case I. Deformity of finger was corrected well.



Fig. 3. Light microscopic view of a biopsy from case I, showing proliferating bundles of fibroblasts and much collagen fibers.

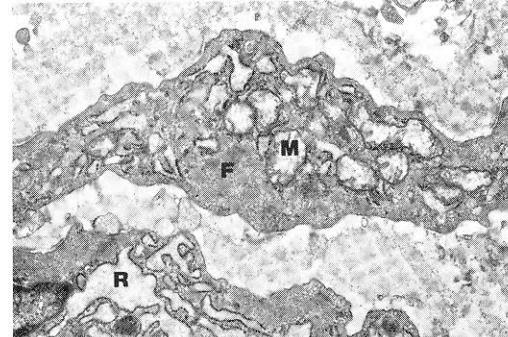


Fig. 4. Electron microscopic view of a biopsy specimen obtained from a patient with Dupuytren's contracture, showing fibroblast with prominent systems of RER(R) and plentiful mitochondria(M). Case 1.  $\times 10,000$

nodule이 촉지되었다.

#### 수술 및 현미경 검사

Dermofasciectomy with full thickness skin graft를 시행하였고 가검물의 광학 현미경 소견상 잘 분화된 fibroblast와 사이 사이에 collagen fiber가 보였으며(Fig. 6) 전자현미경적 소견상 특징적인 myofibroblast가 발견되었다(Fig. 7).

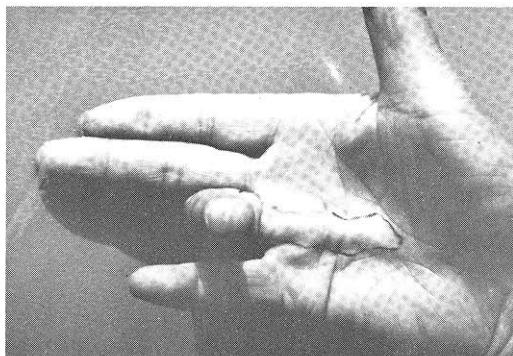


Fig. 5. Right hand of a patient with Dupuytren's contracture, shownig contracture of M-P joint and fibrotic cord in the palm. Preoperative photograph of case 2.



Fig. 6. Light microscopic view of biopsy obtained from case 2, showing well differentiated fibroblasts and collagen fibers between them.

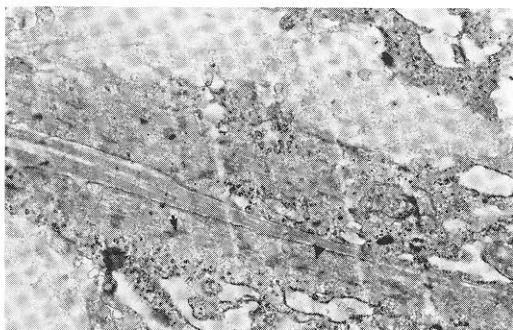


Fig. 7. Electron microscopic view of a biopsy specimen obtained from the hand of a patient with Dupuytren's contracture. Two myofibroblasts are visible, showing long narrow bundles of myofilaments (black wedge) and electron dense bodies (black arrow). Case 2.  $\times 10,000$ .

#### (증례 3)

58세 된 남자 환자로 약 15년전부터 좌측 수장부에 소결절이 촉지되다가 겸차 환자에 굴곡 구축이



Fig. 8. Left hand of a patient with Dupuytren's contracture, showing mild flexion contracture of M-P joint and a fibrotic cord in the palm. Preoperative photograph of case 3.

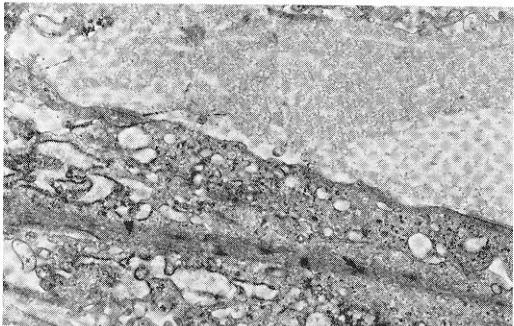


Fig. 9. Electron microscopic view of a biopsy specimen obtained from the hand of a patient with Dupuytren's contracture. A myofibroblast showing a long narrow bundles of myofilaments(black wedge) and electron dense bodies(black arrow). Case 3.  $\times 10,000$ .

#### (증례 4)

남자 51세 환자로 약 3년전부터 우측 환자 및 소지에 굴곡 구축이 있었고, 약 1년전부터 좌측 환자, 소지에도 굴곡 구축이 나타나 이를 주소로 내원하였다. 겸사 결파나 파거력상 alcoholic history를 제외하고는 특이한 것이 없었다.

수술 : Partial fasciectomy by transverse and longitudinal zig zag incision.

## (증례 5)

남자 55세 환자로 우측 소지 근위지 관절의 70°의 굴곡 구축 및 우측 무지 및 소지부의 수장부에도 소결절과 fibrotic cord가 촉지되었으나 굴곡 구축은 없었다.

수술 : Partial fasciectomy

## (증례 6)

남자 58세 환자로 우측 소지의 굴곡 구축을 주소로 내원하였다. 소지 중수지 관절에 약 30°, 근위지 관절에 약 60°정도의 굴곡 구축이 있었으며, 수장부에도 fibrotic cord가 촉지되었다. 우측 수지 배부에는 Dupuytren 구축의 강한 경향을 시사하는 dorsal knuckle pad가 있었다.

수술 : Partial fasciectomy

## 증례 분석

6명의 Dupuytren 구축 환자 중 양측 3례, 우측 2례, 좌측 1례로서 총 6례 9수였으며 그중 6례 7수에서 수술을 시행하였다. 6례 모두 남자였으며 평균 발병연령은 52.3세였고, 평균 57.5세에 수술을 받아 발병부터 수술까지 약 5.2년의 이환기간이 있었다.

Fibrotic cord 및 noduel이나 굴곡 구축이 나타난 부위를 수지별로 보면 환자 8수, 소지 5수, 무지 3수 등으로 주로 수부의 척골측에 호발하는 경향을 보였다.

수술을 시행한 6례 7수중, 2례 2수에 대해서는 dermofasciectomy with full thickness skin graft를, 4례 5수에 대해서는 partial fasciectomy를 시행하였다.

〈표 2〉 증례 분석

증례	연령	성별	주 소	이환기간	수술 결과	전현소견
1	66	남	좌측환지굴곡구축	좌수 1년	Dermofasciectomy & good FTSG	myofibroblast(-)
				우수 1년	Observation	
2	57	남	우측환지굴곡구축	1년	Dermofasciectomy & good FTSG fair	myofibroblast(+)
3	58	남	좌측환지굴곡구축	15년	Partial fasciectomy fair	myofibroblast(+)
4	51	남	양측환지	우수 3년	Partial fasciectomy poor	—
			약지굴곡구축	좌수 3년	Partial fasciectomy —	
5	55	남	우측약지굴곡구축	우수 5년	Partial fasciectomy —	—
				좌수 1년	Observation	
6	58	남	우측약지굴곡구축	3년	Partial fasciectomy —	—

그 결과를 비교해 보면 dermofasciectomy with full thickness skin graft를 시행한 2례 2수에서는 추적기간중 재발이나 병소파급이 없었고 수동적 운동제한은 없으나 경미한 능동적 운동제한이 있어서 Honner 등의 방법<sup>17)</sup>에 의하면 결과는 좋은편이었고, partial fasciectomy를 시행했던 4례 5수중 추적이 되었던 4례 3수에서는, 수술하지 않았던 부위에 병소가 파급되거나, 중수지 관절 굴곡 구축을 치료하기 위해 수술했던 수지의 근위지 관절 굴곡 구축이 나타나고 있어서 결과는 좋지 않았다고 사료된다(〈표 1〉 참조).

이상의 증례들을 요약하면 〈표 2〉와 같다.

〈표 1〉 Evaluation criteria

## Operation result

Excellent Full flexion and extension of the fingers, full function, no recurrences.

Good Slight limitation of flexion or extension.

Recurrence if present it too slight to interfere with normal activity.

Fair Limitation of flexion or extension with joint stiffness. Recurrence or extension limiting function slightly.

Poor No improvement on the initial range of movement of function. Recurrence or extension causing serious loss of function.

## 고찰

1831년 Dupuytren은 수지의 굴곡 변형이 palmar fascia의 progressive fibroplasia에 의해 구축이 일어난다고 하였다. Dupuytren, Skoog 등은 반복적 외상이나 심한 수부노동 수술적 외상 등은 원인

적 요소가 된다고 하였다<sup>5-9)</sup>.

Ling, James 등은 환자의 10~15%에서 가족력이 있으므로 유전적 요소를 강조하였다<sup>8-10)</sup>. 그의 잔질, 알콜중독, 만성 폐질환 등과도 관련이 있다고 하며<sup>8)</sup> 1966년 Burch는 자가 면역 질환이라고 보고하였다<sup>11)</sup>.

인종별로 보면 caucasian race에 발생 빈도가 높고, 동양인이나 흑인에 있어서 빈도가 낮다고 하였다<sup>6,8)</sup>.

발생 연령은 50대에 가장 많았다고 하며, 1960년 Huston에 의하면 평균 48.8세에 발병하여 56.1세에 수술을 받아 평균 7.3년의 이환기간이 있었다고 한다<sup>12,13)</sup>.

성별 차이를 보면 대부분의 수술 통계에서 약 9~7:1의 남녀 비율로 남자가 많다고 보고되어 있으며<sup>12,13)</sup>, 1960년 Huston에 의한 general population study에서는 약 2:1의 남녀비를 보고하면서, 그 이유는 여자에서 disease process가 경하고 느리며 수술을 피하는 경향이 있기 때문이라고 하였다. 침범되는 손은 1/2~2/3에서 양측성이 있고, 편측성이 경우는 우측이 약 2배정도 좌측보다 많다고 하였다<sup>8,12)</sup>.

일반적으로 상처 치유과정에 나타나는 반흔 구축은 fibroblast가 tropocollagen을 생성하여 이것이 재배열 성숙되는 과정에서 일어난다고 생각되었으나, 1970년대에 Gabbiani, Majno, Huston 등은 Dupuytren 구축 환자의 수장부 소결절에서 myofibroblast라는 modified fibroblast를 발견하였고, Guber, Rudolph 등은 이 contractile cell에 의해 반흔 구축이 일어난다고 하였다<sup>2,3,14)</sup>.

이 modified fibroblast(myofibroblast)는 smooth muscle cell의 특성과 비슷한 세가지 특징을 가지고 있다고 한다.

첫째, 세포질내에 smooth muscle cell에서 보이는 것과 유사한 microfilament가 있고

둘째, fibroblast에는 없는 smooth muscle cell의 active cell contraction 하는 동안 nuclei가 fold 되거나 twist 되는 것과 유사한 nuclei의 surface irregularity가 있다(convoluted nuclei).

세번째는, fibroblast는 조직내에서 서로 떨어져 있는데 myofibroblast는 desmosome으로 intercellular attachment가 있었다.

이러한 이유로 fibroblast의 smooth muscle cell의 특성을 동시에 가지는 modified fibroblast를 myofibroblast라 하였다. 이 myofibroblast는

smooth muscle cell에 대한 antibody를 이용한 immunofluorescent stain에서 stain 된다고 하며 smooth muscle의 수축 및 이완제에 의해서도 반응하였다고 한다. Myofibroblast는 창상의 수축에 일치하는 life cycle이 있어서 활발하게 수축하는 창상에서는 많이 발견되지만, old stable wound에서는 발견되지 않고 세포를 수축상태로 보존하고 collagen을 재배열하여 변하지 않는 흉터를 만드는 filament가 많은 fibroblast가 발견된다고 한다.

Dupuytren 구축에서도 palmar nodule에서는 myofibroblast가 발견되지만 fibrotic cord에서는 발견되지 않는다고 한다.

이번 조사에서는 6례 중 3례의 전자 현미경 검사에서 fibrotic cord를 가진 환자에서는 fibroblast를(Fig. 4), palmar nodule을 가진 2명의 환자에서는 myofibroblast를 발견할 수 있었다(Fig. 7, 9).

수술 방법으로는 크게 5가지로

1. Subcutaneous fasciotomy
2. Partial fasciectomy
3. Total or radical fasciectomy
4. Dermofasciectomy with full thickness skin graft

5. Amputation 등이 있으며<sup>7,8,13,15~17)</sup>, subcutaneous fasciotomy 보다 partial fasciectomy가, 이보다는 total fasciectomy가 재발율은 적으나 술 후 합병증은 많다고 하였다<sup>7,12,13,18~21)</sup>.

Dermofasciectomy with full thickness skin graft는 병변이 있는 근막과 함께, 유착된 피부도 같이 절제하고 천층식 피술을 시행하는 방법으로서, 경험적으로 graft bed에서의 재발은 없다고 하였다<sup>5,8)</sup>.

술후 합병증으로는 초기 및 후기 합병증으로 나누어, 초기 합병증에 피하혈종, 피부괴사, 부종 및 강직, 수지신경 절단 등이 있고, 후기 합병증으로 병소파급이나 재발이 있다고 한다<sup>10,13,20,21)</sup>.

## 요약

동양에서는 비교적 드문 Dupuytren 구축 환자 6례 9수를 경험하여 6례 7수를 수술로 치료하였기에 문헌고찰과 함께 이를 보고하는 바이다.

Partial fasciectomy로 치료한 경우보다 dermofasciectomy with full thickness skin graft로 치료한 경우가 더 결과가 좋았다. Dermofasciectomy with full thickness skin graft로 치료할 경우 적

어도 수술부위에서의 재발은 방지할 수 있으므로 국한된 병소가 있고, 근위지 관절 굽곡 구축이 있는 경우에 특히 좋을 것으로 사료된다.

6례중 3례에서 전자현미경 검사를 시행하여 그중 2례에서 myofibroblast의 존재를 확인하였다.

Dupuytren 구축 환자에 있어서 수술후 재발 유무가 myofibroblast의 존재와 관계있으리라고 생각되므로 모든 환자에 광학 및 전자 현미경 검사를 시행하는 것이 좋을 것으로 사료된다.

### 참 고 문 헌

- Badalamente MA, Hurst LC: Pathogenesis of Dupuytren's contracture. *J Hand Surg* 1983; 8 : 235-243.
- Gelberman RH, et al: Dupuytren's contracture: An electronmicroscopic, biochemical and clinical correlative study. *J Bone Joint Surg [Am]* 1980; 62 : 524-531.
- Guber S, Rudolph R: The myofibroblast. *Surg Gynecol Obstet* 1978; 146 : 641-648.
- Rudolph R, Guber S, Suzuki M, Woodward MBS: The life cycle of the myofibroblast. *Surg Gynecol Obstet* 1977; 145 : 389-394.
- Brashear HR, Raney RB: *Handbook of orthopaedic surgery*, ed 10. St Louis, CV Mosby Co, 1986, pp 492-493.
- David PG: *Operative hand surgery*, New York, C Livingstone Co, 1982, pp 463-498.
- Edmonson AS, Grenshaw AH: *Campbell's operative orthopaedics*, ed 6. St Louis, CV Mosby Co, 1980, pp 354-361.
- Flynn JE: *Hand surgery*, ed 3. Baltimore, Williams and Wilkins Co, 1982, pp 792-828.
- Stein A, Wang MKH, Macomber WB, Rajpal R, Hefferman A: Dupuytren's contracture: A morphologic evaluation of the pathogenesis. *Ann Surg* 1984; 151 : 577-580.
- Ling RSM: The genetic factor in Dupuytren's disease. *J Bone Joint Surg [Br]* 1963; 45 : 709-718.
- Burch PRJ, Leeds: Dupuytren's contracture; An autoimmune disease? *J Bone Joint Surg [Br]* 1966; 48 : 312-319.
- Heyse LWF: Dupuytren's contracture and its surgical treatment: Clinical study of local resection method. *JAMA* 1960; 174 : 113-118.
- McFarlane RM, Jamieson WC: Dupuytren's contracture: The management of one hundred patients. *J Bone Joint Surg [Am]* 1966; 48 : 1095-1105.
- Ehrlich HP, Hunt TK: Evidence for involvement of microtubules in wound contraction. *Am J Surg* 1977; 133 : 706-709.
- Baker B, Watson HK: Relieving the skin shortage in Dupuytren's disease by advancing a series of triangular flaps. *Br J Plast Surg* 1980; 33 : 1-3.
- Crawford HR: Surgical correction of Dupuytren's contracture. *Surg Clin North Am* 1956; 36 : 793-799.
- Freehafer AA, Strong JM: The treatment of Dupuytren's contracture by partial fasciectomy. *J Bone Joint Surg [Am]* 1963; 45 : 1207-1217.
- 최충석, 심응석, 김용주: Dupuytren 구축의 치험례. 대한정형외과학회지 1975; 10 : 481-486.
- 장종호, 김봉현, 문명상: Dupuytren 구축의 치험 3례. 대한정형외과학회지 1972; 7 : 141-145.
- Honner R: Dupuytren's contracture: Long term result after fasciectomy. *J Bone Joint Surg [Br]* 1972; 53 : 240-246.
- McFarlane RM: Patterns of the diseased fascia in the fingers in Dupuytren's contracture: Displacement of the neurovascular bundle. *Plast Reconstr Surg* 1974; 54 : 31-44.
- Glimcher MJ, Parsons DB, Adams JP, et al: Biochemical changes in the collagen of palmar fascia in patients with Dupuytren's disease. *J Bone Joint Surg [Am]* 1981; 63 : 787-797.