

✧ 骨骼肌肉影像学

Gray-scale ultrasound-based radiomics for differential diagnosis of subcutaneous hemangioma and Kaposiform hemangioendothelioma

NIU Yaning¹, YU Yihang¹, GONG Yubin², DONG Jian³, ZHAO Jing¹, HU Wenjia¹,
DONG Changxian², LIU Qiuyu⁴, WU Gang^{1*}

(1. Department of Ultrasound, 2. Department of Hemangioma, 3. Department of Medical Imaging,
4. Department of Pathology, Henan University People's Hospital, Henan Provincial
People's Hospital, Zhengzhou 450003, China)

[Abstract] **Objective** To observe the value of gray-scale ultrasound-based radiomics for differential diagnosis of subcutaneous hemangioma (HE) and Kaposiform hemangioendothelioma (KHE). **Methods** Data of 252 lesions of 143 children with subcutaneous HE and 70 children with KHE were retrospectively analyzed. The lesions were randomly divided into training set ($n=176$) and validation set ($n=76$) at the ratio of 7:3. Gray-scale ultrasound-based radiomics features were extracted to build radiomics models and combined model with clinical data. The efficacy of each model for differential diagnosis of subcutaneous HE and KHE were observed. **Results** A total of 22 stable features with non-zero coefficients were selected. The area under the curve (AUC), accuracy, sensitivity, specificity, positive predictive value and negative predictive value of radiomics model for differential diagnosis of subcutaneous HE and KHE in training set was 0.91 (95% CI [0.89, 0.93]), 91.41%, 83.20%, 93.92%, 95.79% and 89.00%, while in validation set was 0.85 (95% CI [0.83, 0.87]), 90.78%, 79.32%, 97.90%, 96.71% and 88.68%, respectively. The AUC, accuracy, sensitivity, specificity, positive predictive value and negative predictive value of combined model for differential diagnosis of subcutaneous HE and KHE in training set was 0.94 (95% CI [0.92, 0.96]), 94.33%, 90.77%, 96.38%, 94.23% and 94.90%, while in validation set was 0.90 (95% CI [0.88, 0.92]), 92.14%, 85.69%, 95.76%, 93.33% and 92.30%, respectively. The AUC of combined model for differential diagnosis of subcutaneous HE and KHE were higher than those of radiomics model (both $P<0.05$). **Conclusion** Gray-scale ultrasound-based radiomics was effective for differentiating subcutaneous HE and KHE, and the diagnostic efficacy could be further improved combining with clinical features.

[Keywords] hemangioma; hemangioendothelioma; ultrasonography; radiomics

DOI:10.13929/j.issn.1003-3289.2022.11.024

灰阶超声影像组学鉴别诊断皮下组织血管瘤与卡波西型血管内皮瘤

牛雅宁¹, 于一行¹, 龚毓宾², 董健³, 赵婧¹, 胡文笏¹, 董长宪², 刘秋雨⁴, 吴刚^{1*}

(1. 河南大学人民医院 河南省人民医院超声科, 2. 血管瘤科, 3. 医学影像科, 4. 病理科, 河南 郑州 450003)

[摘要] **目的** 观察灰阶超声影像组学鉴别诊断皮下组织血管瘤(HE)与卡波西型血管内皮瘤(KHE)的价值。**方法** 回顾性分析 143 例皮下组织 HE 和 70 例 KHE 共 252 处病灶, 按 7:3 比例将病灶随机分为训练集($n=176$)和验证集($n=76$); 提取病灶灰阶超声影像组学特征, 构建影像组学模型, 结合临床资料建立联合模型, 观察各模型鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的效能。**结果** 共选取 22 个系数非零的稳定特征。影像组学模型鉴别训练集皮下组织 HE 与 KHE 的曲线

[第一作者] 牛雅宁(1994—), 女, 河南济源人, 在读硕士, 医师。研究方向: 浅表器官超声诊断。E-mail: nyn0627@163.com

[通信作者] 吴刚, 河南大学人民医院 河南省人民医院超声科, 450003。E-mail: wug325@163.com

[收稿日期] 2022-06-14 **[修回日期]** 2022-08-25

下面积(AUC)、准确率、敏感度、特异度、阳性预测值及阴性预测值分别为 0.91[95% CI(0.89, 0.93)]、91.41%、83.20%、93.92%、95.79% 及 89.00%; 用于验证集分别为 0.85[95% CI(0.83, 0.87)]、90.78%、79.32%、97.90%、96.71% 及 88.68%。联合模型鉴别训练集皮下组织 HE 与 KHE 的 AUC、准确率、敏感度、特异度、阳性预测值及阴性预测值分别为 0.94[95% CI(0.92, 0.96)]、94.33%、90.77%、96.38%、94.23% 及 94.90%; 用于验证集分别为 0.90[95% CI(0.88, 0.92)]、92.14%、85.69%、95.76%、93.33% 及 92.30%。联合模型鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的 AUC 均大于影像组学模型(P 均 <0.05)。结论 灰阶超声影像组学鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的效能较佳; 联合临床特征可进一步提高其诊断效能。

[关键词] 血管瘤; 血管内皮瘤; 超声检查; 影像组学

[中图分类号] R732.2; R445.1 [文献标识码] A [文章编号] 1003-3289(2022)11-1704-06

皮下组织血管瘤(hemangioma, HE)是临床常见脉管源性肿瘤,好发于婴幼儿,预后多较好;其常见类型包括婴幼儿血管瘤(infantile hemangioma, IH)和先天性血管瘤(congenital hemangioma, CH)。卡波西型血管内皮瘤(Kaposiform hemangioendothelioma, KHE)为发生于皮下软组织或脏器局部的侵袭性肿瘤,好发于儿童、尤其婴幼儿,预后不佳,死亡率高达 12%~30%^[1-4]。HE 与 KHE 影像学表现存在重叠,但预后差异较大,因此鉴别诊断极为重要。本研究观察基于灰阶超声影像组学特征构建的模型用于鉴别皮下组织 HE 与 KHE 的价值。

1 资料与方法

1.1 研究对象 回顾性分析 2014 年 10 月—2022 年 2 月河南省人民医院 143 例皮下组织 HE 患儿(HE 组),男 45 例,女 98 例,年龄 15 天~5 岁,中位年龄 4 个月;共 158 处病灶,129 例 1 处、13 例 2 处及 1 例 3 处病灶,位于头颈部 67 处、躯干 65 处、四肢 26 处。收集同期 70 例 KHE 患儿(KHE 组),男 31 例,女 39 例,年龄 9 天~3 岁,中位年龄 3 个月;共 94 处病灶,包括 51 例 1 处、15 例 2 处、3 例 3 处及 1 例 4 处病灶,位于头颈部 34 处、躯干 28 处、四肢 32 处。纳入标准:①根据国际血管瘤和脉管畸形研究学会(International Society for the Study of Vascular Anomalies, ISSVA)血管瘤和脉管畸形诊治指南 2018

版^[3-4]确诊;②接受超声检查且留存图像清晰;③可从灰阶超声图像中获取目标病灶最大直径切面;④临床资料完整。排除标准:①病灶径线过大,超过探头最长径(5.6 cm);②病灶位置过于表浅,根据外观即可确诊;③曾接受相关手术或硬化治疗。本研究获得医院伦理委员会批准。

1.2 仪器与方法 由 1 名具有 10 年超声工作经验的主治医师采用 Siemens S3000、ACUSON Sequoia 超声诊断仪,频率 6~18 MHz 18L6 线阵探头进行检查。根据病灶位置选择体位,充分暴露受检部位,将探头轻置于病灶处皮肤,肿块隆起时厚涂耦合剂;将病灶置于视野中央,调至合适增益,采用高频灰阶成像多切面观察病灶位置、范围、边界及内部回声等,并以 CDFI 记录其内血流信号;最后将显示病灶最大径切面的灰阶声像图存于超声仪器硬盘,导出格式为 DICOM 3.0。

1.3 提取特征及建立模型 由另 1 名具有 10 年超声工作经验的主治医师和 1 名具有 20 年超声工作经验的副主任医师采用 MRICroGL 沿声像图所示病灶边缘勾画 ROI(图 1),并以 Python 3.7.1 中的 Pyradiomics 工具包提取 ROI 的影像组学特征。采用 Python 3.7.1 对特征数据进行归一化和标准化,以最小绝对收缩和选择算法(least absolute shrinkage and selection operator, LASSO)降维筛选最优特征,建立支持向量机(support vector machine, SVM)模型;按 7:3

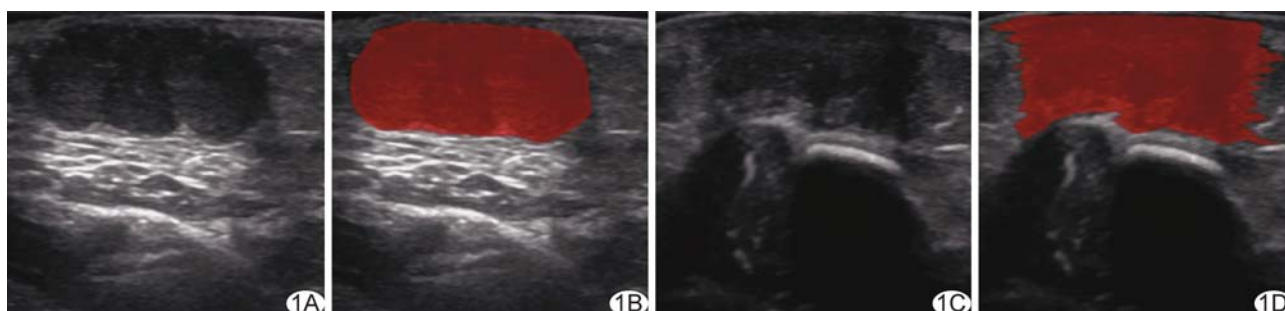


图 1 获取声像图中皮下组织 HE 和 KHE 的 ROI A. 灰阶声像图显示皮下组织 HE; B. 分割 HE 病灶 ROI; C. 灰阶声像图显示 KHE; D. 分割 KHE 病灶 ROI

比例将 252 处病灶随机分为训练集 ($n=176$) 和验证集 ($n=76$)。

1.4 统计学分析 采用 SPSS 23.0 统计分析软件。以 $\bar{x} \pm s$ 表示服从正态分布的计量资料,组间行独立样本 t 检验;以中位数(上下四分位数)表示非

正态分布的计量资料,组间行 Mann-Whitney U 检验。以 χ^2 检验比较计数资料。绘制受试者工作特征(receiver operating characteristic, ROC)曲线,采用 DeLong 检验比较曲线下面积(area under the curve, AUC),评价 SVM 模型诊断效能。 $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

2.1 临床资料 HE 组与 KHE 组患儿性别及年龄差异均无统计学意义(P 均 >0.05),而病灶部位与血小板计数差异均有统计学意义(P 均 <0.05)。HE 组头颈部及躯干病灶数目均多于四肢(P 均 <0.05);KHE 组各部位病灶数目差异均无统计学意义(P 均 >0.05)。见表 1。

2.2 提取及筛选影像组学特征 共提取 2 组 951 个影像组学特征,剔除 185 个后剩余 766 个,经降维最终选取 22 个系数非零的稳定特征,包括 9 个 GLSZM、6 个 GLCM、4 个 firstorder、2 个 NGTDM 及 1 个 GLRLM。见图 2。

2.3 建立模型

2.3.1 影像组学模型 基于 22 个影像组学特征建立的影像组学模型鉴别训练集皮下组织 HE 与 KHE 的 AUC、准确率、敏感度、特异度、阳性预测值及阴性预测值分别为 0.91[95% CI(0.89, 0.93)]、91.41%、83.20%、93.92%、95.79%及 89.00%;用于验证集分别为 0.85[95% CI(0.83, 0.87)]、90.78%、79.32%、97.90%、96.71%及 88.68%。见图 3A、3B。

2.3.2 联合模型 基于 2 个临床特征(病灶部位、血小板计数)和 22 个影像组学特征建立的联合模型鉴别训练集皮下组织 HE 与 KHE 的 AUC、准确率、敏感度、特异度、阳性预测值及阴性预测值分别为 0.94[95% CI(0.92, 0.96)]、94.33%、90.77%、96.38%、94.23%及 94.90%;用于验证集分别为 0.90[95% CI(0.88, 0.92)]、92.14%、85.69%、95.76%、93.33%及 92.30%。见图 3C、3D。

联合模型鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的

表 1 皮下组织 HE 和 KHE 患儿临床资料比较

组别	性别(例)		月龄	病灶部位(处)			血小板计数 ($\times 10^9/L$)
	男	女		头颈部	躯干	四肢	
HE 组($n=143$)	45	98	4.0(2.0, 6.0)	67	65	26*#	330.00(237.00, 421.00)
KHE 组($n=70$)	31	39	3.0(1.0, 7.0)	34	28	32	127.00(97.00, 185.00)
χ^2/U 值	3.36		-1.37	13.33			-3.29
P 值	0.07		0.17	<0.05			<0.05

注: * : 与同组内头颈部比较 $P<0.05$; # : 与同组内躯干比较 $P<0.05$

AUC 均大于影像组学模型(P 均 <0.05),见表 2。

3 讨论

HE 为良性血管肿瘤;皮肤表面 HE 多因患儿出生后发现皮肤鲜红色或紫红斑块而就诊,临床易于诊断;但皮下组织 HE 并无特异性皮损表现,多需结合影像学检查。研究^[5-7]显示,HE 超声表现因病灶累及皮肤深度不同而有所差异:仅累及皮肤层的 HE 呈低回声,累及皮下脂肪层或更深层组织者多呈不均匀高回声,同时累及皮肤全层或真皮深层及皮下组织者多呈不均匀混合回声。

KHE 是局部侵袭性肿瘤,约占血管肿瘤的 2%,外观呈紫红色结节或斑块^[3];部分 KHE 增长速度较快,可见患者血小板严重减少、继发性纤维蛋白原和凝血因子消耗等表现,即卡-梅现象(Kasabach-Merritt phenomenon, KMP)。KHE 内部可见成团的梭形内皮细胞及高度纤曲扩张的微血管,以及大量发育不良的狭窄管腔,其中充满红细胞,类似卡波西肉瘤,且边缘伴随恶性肿瘤常见的间质反应^[4,8];这种复杂的病理表现导致其超声表现多样。文献报道^[9-11]KHE 超声多表现为高低混杂的不均匀混合回声,边界不清,以低回声为主,部分内可见管腔样无回声。皮下组织 HE 与 KHE 患儿好发年龄及超声特征相似,医师仅根据病史和查体难以鉴别;但 HE 后期可自行消退,以药物治疗为主,而 KHE 具有局部侵袭性、预后差,需及时干预以控制疾病进展。

影像组学将视觉影像信息转化为深层次特征以进行量化研究,从而为临床诊断提供重要依据^[12]。脉管源性疾病的术前诊断多基于临床和常规超声,且依赖于医师经验;而影像组学较为客观,不受操作者主观影响。既往关于浅表软组织肿瘤的影像组学研究^[13-15]多基于 CT 和 MRI;如 DING 等^[13]建立 MRI SVM 模型,并发现其用于鉴别诊断 KHE 与纤维脂肪血管异常的效能较佳,在训练集和验证集中的 AUC 分别为 0.807[95% CI(0.602, 1.000)]和 0.846[95% CI(0.659, 1.000)];还有研究^[14-15]表明放射影像组学模型用于鉴别良恶性软组织肿瘤、评估疗效及预测生存期具有一定价值。相较

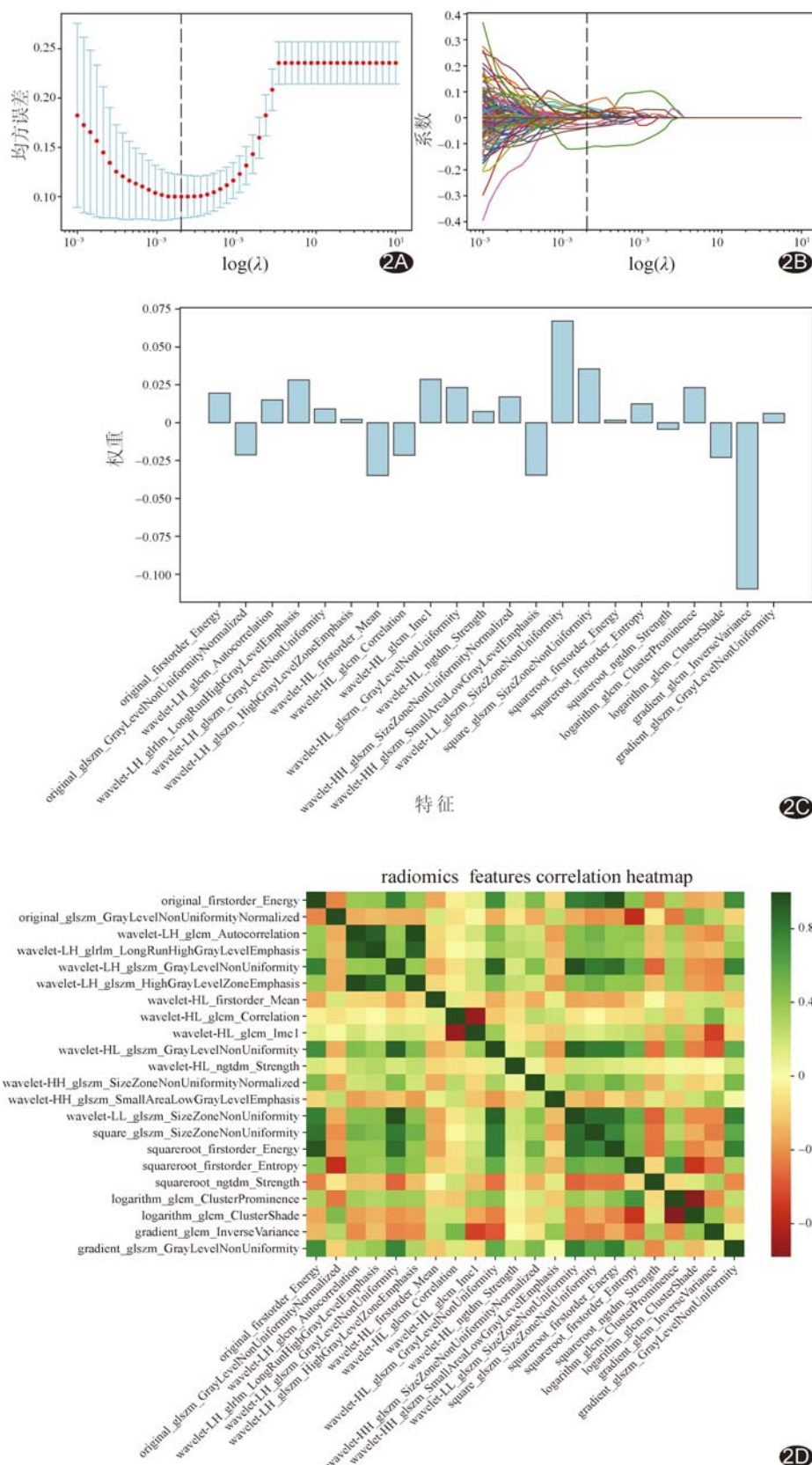


图2 筛选影像组学特征 A. 以基于成本函数的十折交叉验证选择 LASSO 模型中的调优参数 λ ; B. 基于 LASSO 构建模型的变量选择 22 个系数非零的稳定影像组学特征; C、D. 22 个影像组学特征的权重图(C)和热图(D)

于 CT、MRI, 超声具有经济、便捷、安全无辐射等优点, 但其影像组学用于诊断软组织肿瘤相关研究相对少见。

本研究提取皮下组织 HE 和 KHE 的灰阶超声影像组学特征, 并通过降维筛选去除冗余特征, 以防止数据过拟合、提高模型稳定性, 最终筛选出 22 个最优特征; 其中, 绝大多数属于纹理特征, 表明纹理特征具有良好的分类作用。训练集及验证集中, 基于 22 个影像组学特征建立的影像组学模型鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的 AUC 分别为 0.91 [95% CI (0.89, 0.93)] 及 0.85 [95% CI (0.83, 0.87)], 表明超声影像组学特征鉴别诊断效能较佳; 而基于 2 个组间差异具有统计学意义的临床特征和 22 个影像组学特征建立的联合模型鉴别诊断的 AUC 分别为 0.94 [95% CI (0.92, 0.96)] 及 0.90 [95% CI (0.88, 0.92)], 其效能

优于影像组学模型, 表明超声影像组学特征进一步联合临床特征可提高其诊断价值。此外, 本研究 2 个组间差异具有统计学意义的临床特征为病灶部位和血小板计数; 其中, 皮下组织 HE 多位于头颈部及躯干, KHE 病灶分布差异则无统计学意义; 而 HE 患儿凝血功能多正常, 但部分 KHE 患儿可合并 KMP^[3], 故血小板计数存在差异。然而, 有学者^[11]认为 HE 多发于头颈部、KHE 多发于四肢; 可能与样本量差异有关。

本研究主要局限性: ①小样本、单中心研究; ②仅针对病灶单一层面进行影像组学研究, 无法客观反映病灶整体结构特征; ③仅针对灰阶图像进行分析, 具有片面性, 未来可纳入血流信号、弹性成

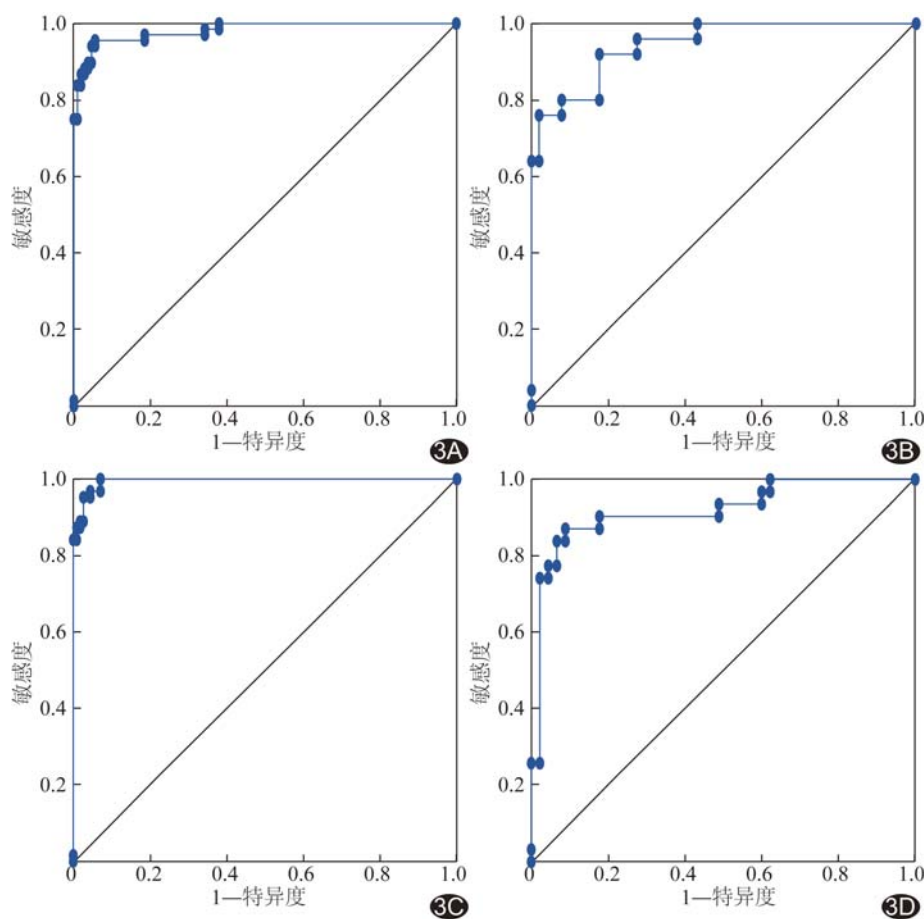


图3 影像组学模型和联合模型鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的 ROC 曲线 A. 影像组学模型用于训练集; B. 影像组学模型用于验证集; C. 联合模型用于训练集; D. 联合模型用于验证集

表2 影像组学模型与联合模型鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的效能

模型	训练集 AUC(95%CI)	验证集 AUC(95%CI)
影像组学模型	0.91(0.89,0.93)	0.85(0.83,0.87)
联合模型	0.94(0.92,0.96)	0.90(0.88,0.92)
Z 值	-2.31	-2.01
P 值	0.02	0.04

像、造影或其他相关检查,进行多模态研究,构建更稳健的模型,观察其诊断效能。

综上所述,灰阶超声影像组学鉴别诊断皮下组织 HE 与 KHE 的效能较佳,进一步联合临床特征可提高其诊断效能。

[参考文献]

- [1] CROTEAU S E, LIANG M G, KOZAKIEWICH H P, et al. Kaposiform hemangioendothelioma: Atypical features and risks of Kasabach-Merritt phenomenon in 107 referrals[J]. J Pediatr, 2013, 162(1):142-147.
- [2] WASSEF M, BLEI F, ADAMS D, et al. Vascular anomalies classification: Recommendations from the international society for the study of vascular anomalies[J]. Pediatrics, 2015, 136(1):e203-e214.
- [3] International Society for the Study of Vascular Anomalies. ISSVA classification for vascular anomalies[EB/OL]. (2018-05-18) [2022-06-14]. <https://www.issva.org/UserFiles/file/ISSVA-Classification-2018.pdf>.
- [4] 中华医学会整形外科学分会血管瘤和脉管畸形学组. 血管瘤和脉管畸形的诊断及治疗指南(2019 版)[J]. 组织工程与重建外科杂志, 2019, 15(5): 277-317.
- [5] JOHNSON C M, NAVARRO O M. Clinical and sonographic features of pediatric soft-tissue vascular anomalies part 1: Classification, sonographic approach and vascular tumors[J]. Pediatr Radiol, 2017, 47(9):1184-1195.
- [6] 龚霞, 李佳, 熊屏, 等. 先天性血管瘤的二维和三维超声影像学特点及意义[J]. 中华整形外科杂志, 2020, 36(9):1011-1017.
- [7] 王丹丹, 秦晓婷, 郭稳, 等. 高频超声对浅表血管内肿瘤的诊断价值[J]. 中华超声影像学杂志, 2022, 31(1):63-67.
- [8] 张一, 汪朝霞, 尹书月, 等. 儿童卡波西型血管内皮瘤超声与病理学表现[J]. 中国医学影像技术, 2022, 38(2):272-275.
- [9] ERDEM TOSLAK I, STEGMAN M, REITER M P, et al. Atypically presenting Kaposiform hemangioendothelioma of the knee: Ultrasound findings[J]. J Med Ultrason (2001), 2018, 45(4):653-656.
- [10] GONG X, YING H, ZHANG Z, et al. Ultrasonography and magnetic resonance imaging features of Kaposiform hemangioendothelioma and tufted angioma[J]. J Dermatol, 2019, 46(10):835-842.
- [11] 羊樟福, 胡博, 付佩尧, 等. 卡波西型血管内皮瘤诊疗进展[J]. 中国临床医学, 2019, 26(2):286-291.
- [12] LAMBIN P, RIOS-VELAZQUEZ E, LEIJENAR R, et al. Radiomics: Extracting more information from medical images using advanced feature analysis[J]. Eur J Cancer, 2012, 48(4): 441-446.
- [13] DING Y, WANG Z, XU P, et al. MRI-based radiomics in distinguishing Kaposiform hemangioendothelioma (KHE) and fibro-adipose vascular anomaly (FAVA) in extremities: A preliminary retrospective study[J]. J Pediatr Surg, 2022, 57(7):1228-1234.

[14] YI J, LEE Y H, KIM S K, et al. Response evaluation of giant-cell tumor of bone treated by denosumab: Histogram and texture analysis of CT images[J]. J Orthop Sci, 2018, 23(3):570-577.

[15] WU Y, XU L, YANG P, et al. Survival prediction in high-grade osteosarcoma using radiomics of diagnostic computed tomography[J]. EBioMedicine, 2018, 34:27-34.

Ultrasound-guided simplified tendon sheath release for treating de Quervain disease of left wrist: Case report 超声引导下简易腱鞘松解术治疗左腕德凯尔万病 1 例

唐亚群¹, 吕 涛², 谢文杰¹, 陈伟文¹, 张 恒¹, 黄 静^{1*}

[1. 珠海市人民医院医疗集团(暨南大学附属珠海医院, 澳门科技大学医学院第一附属医院)超声影像科, 2. 创伤骨科, 广东 珠海 519000]

[Keywords] de Quervain disease; tendon entrapment; ultrasonography; interventional therapy

[关键词] 德凯尔万病; 腱嵌压; 超声检查; 介入治疗

DOI: 10.13929/j.issn.1003-3289.2022.11.025

[中图分类号] R686.1; R445.1 [文献标识码] B [文章编号] 1003-3289(2022)11-1709-01

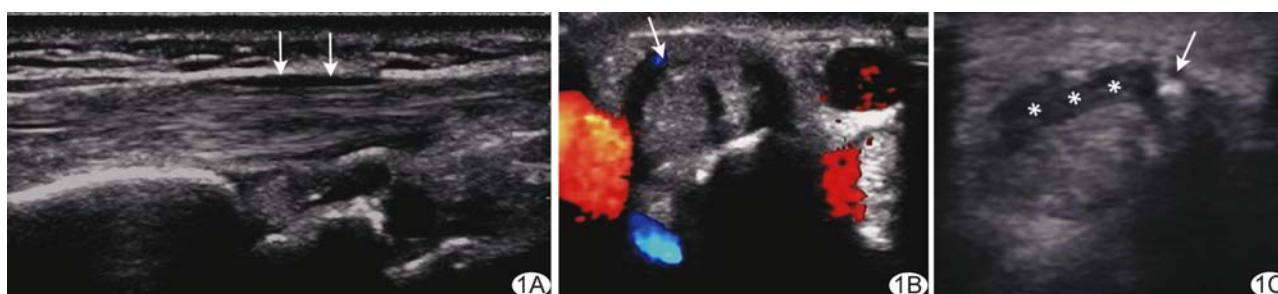


图 1 左腕德凯尔万病 A. 左腕部桡侧长轴切面声像图示腱鞘(箭); B. 左腕部桡侧横轴切面 CDFI 示腱鞘(箭); C. 于超声引导下左腕部桡侧腱鞘简易松解术(箭示注射器针尖, * 示腱鞘增厚)

患者男, 44 岁, 左腕部桡侧疼痛、拇指功能受限 6 个月, 加重 2 周; 既往无特殊病史。查体: 左腕部桡侧轻度肿胀伴压痛, 左侧握拳尺偏(Finkelstein)试验阳性、桡神经浅层蒂内尔(Tinel)征阴性。未行实验室检查。超声: 左腕桡侧第一腔室内腱鞘增厚、回声减低(图 1A), 腱鞘内血流信号增多(图 1B); 提示德凯尔万(de Quervain)病。行超声引导下左侧腱鞘简易松解术, 以无菌探头定位并选择进针路径后, 使注射器针尖斜面朝桡侧, 以 1% 利多卡因 4 ml 逐层浸润局部麻醉至肌腱与腱鞘间, 并推入 2 ml 利多卡因于其间, 使肌腱与腱鞘分离; 以 20 号注射器针头作为钩刀, 沿离心方向轻柔切割腱鞘(图 1C), 并以超声于长、短轴切面动态观察针尖位置, 直至腱鞘完全松解; 之后向腱鞘内注入 1 ml 倍他米松+1 ml 利多卡因悬浮液。术中未见明显出血, 动态超声示拇指被动屈伸运动顺畅, 提示完全

松解。术后包扎伤口, 局部冰敷, 并嘱患者休息、佩戴拇指护具 2 周, 期间辅以适度适量活动; 期间左腕部桡侧疼痛明显减轻, 手臂、肩部和手部残疾评分(QuickDASH)结果显示无明显不良反应及功能障碍; 随访 1 个月未见复发。

讨论 德凯尔万病主要由腕关节反复屈伸运动和拇指外展阻力引起, 桡骨茎突处慢性轻度损伤可使腕伸肌支持带局限性增厚及第一伸肌腱腱鞘空间变窄, 导致拇长与拇短伸肌腱撞击、发生炎症; 常与创伤、妊娠相关, 多见于 30~50 岁女性; 以保守治疗为首选, 包括注射非甾体类镇痛剂、多模式运动。本例男性患者来自西藏自治区林芝市米林县, 医疗资源有限; 乃于超声引导下左侧腱鞘简易松解术, 以注射器针头作为钩刀松解增厚粘连的腱鞘, 实现麻醉、松解一体化, 损伤有限而疗效较佳, 提示此法可作为安全、高效、易操作和低成本微创治疗方法而推广应用。

[基金项目] 珠海市科技计划(ZH22036201210037PWC)。

[第一作者] 唐亚群(1990—), 女, 湖南永州人, 硕士, 医师。E-mail: trecytang@126.com

[通信作者] 黄静, 珠海市人民医院医疗集团(暨南大学附属珠海医院, 澳门科技大学医学院第一附属医院)超声影像科, 519000。

E-mail: 645107431@qq.com

[收稿日期] 2022-05-18 [修回日期] 2022-08-23