

✧ 骨骼肌肉影像学

Establishing simple scoring model based on *Logistic* regression analysis to identify benign and malignant bone tumor of ankle and its diagnosis effectiveness

HE Zilong, LIAO Xin, QIN Jie, ZENG Hui, WEN Chanjuan, XIE Yuwen, CHEN Weiguo*

(Department of Radiology, Nanfang Hospital, Southern Medical University, Guangzhou 510515, China)

[Abstract] **Objective** To establish simple scoring model to identify benign and malignant bone structure tumor of the ankle and diagnosis effectiveness based on the clinical and X-ray features. **Methods** The clinical feature and X-ray signs data of 114 cases of ankle bone structure tumor confirmed by pathology were retrospectively analyzed. Clinical feature included sex, age, accessible mass, tenderness, pain improves, get worse with exercise, increase skin temperature, night pain, movement disorder; X-ray included location (shins, fibulas and talus), quantity, long cross ratio (>1 cm or ≤ 1 cm), grown (expansive or infiltrative), calcifications, bony ridge, ground-glass opacity, sclerotic margins, edge, pathological fracture, articular surface, outside of bony cortex, the body of lesions, periosteal reaction, soft tissue mass, pseudarthrosis. High correlation signs were obtained by univariate and binary *Logistic* regression analysis, and a simple evaluation model was established, the diagnostic efficacy was evaluated with ROC curve. **Results** Through univariate and binary *Logistic* regression analysis, age ($OR=4.545$), pathological fracture ($OR=2.567$), periosteal reaction ($OR=4.675$) and soft tissue mass ($OR=8.148$) were risk factors; long cross ratio ($OR=0.126$), sclerotic margins ($OR<0.001$), the body of lesions ($OR=0.070$) and edge ($OR=0.074$) were protection factors. Score = (long cross ratio + sclerotic margins + close to the bone cortex + edge) - (age + pathological fracture + periosteal reaction + soft tissue mass), there was a cumulative one point when existed each of the above factors, whereas was 0 points when the absence. Taking 1.5 points as threshold, there was benign which was larger than 1.5 points, malignant which was less than 1.5 points, the sensitivity was 86.9%, specificity of 74.7%. **Conclusion** Ankle simple scoring model can help to qualitative ankle bone tumors, and improve the diagnostic efficiency and provide objective basis for benign and malignant identification.

[Key words] Ankle joint; Bone neoplasms; Logistic analysis; Score model

DOI:10.13929/j.1003-3289.2016.11.029

基于 *Logistic* 回归分析建立踝关节骨肿瘤良恶性鉴别简易评分模型及诊断效能

何子龙, 廖 昕, 秦 杰, 曾 辉, 文婵娟, 谢于雯, 陈卫国*

(南方医科大学南方医院放射科, 广东 广州 510515)

[摘 要] **目的** 基于踝关节骨性结构(包括胫骨远端、腓骨远端及距骨)骨肿瘤的临床及 X 线特征建立评分模型, 并评价其诊断效能。 **方法** 回顾性分析接受 X 线检查并经病理证实的 114 例踝关节骨性结构骨肿瘤患者的临床与 X 线征象, 纳入 25 个特征, 临床 9 个[性别、年龄、触及肿块(有或无)、压痛(有或无)、休息缓解(是或否)、运动加剧(有或无)、皮温升

[基金项目] 广东省省级科技计划项目(2015B020233002、2015B020233008)、广东省科技计划项目(2016ZC0058)、广州市科技计划项目(201604020058)、南方医科大学大学生创新创业训练计划项目(201512121126)。

[第一作者] 何子龙(1990—), 男, 广东佛山人, 在读硕士。研究方向: 骨关节疾病及乳腺疾病影像学。E-mail: 413041175@qq.com

[通信作者] 陈卫国, 南方医科大学南方医院放射科, 510515。E-mail: chenweiguo1964@21cn.com

[收稿日期] 2016-05-09 **[修回日期]** 2016-08-03

高(有或无)、夜间疼痛(有或无)及活动障碍(有或无)],X线 16 个[部位(胫骨远端、腓骨远端、距骨)、数量(单或多)、长横径之比($>1\text{ cm}$ 或 $\leq 1\text{ cm}$)、生长方式(膨胀性生长或浸润性生长)、钙化(有或无)、残留骨嵴(有或无)、毛玻璃样改变(有或无)、硬化边(有或无)、边缘清晰(是否)、病理性骨折(有或无)、累及关节面(有或无)、突出骨皮质(有或无)、病灶主体(骨皮质或骨髓腔内)、骨膜反应(有或无)、软组织肿块形成(有或无)、假关节形成(有或无)],通过二分类 Logistic 回归分析,获取相关性高的征象,构建简易评分模型评价肿瘤良恶性,并利用 ROC 曲线分析该模型的诊断效能。**结果** 经二分类 Logistic 回归分析,年龄($OR=4.545$)、病理性骨折($OR=2.567$)、骨膜反应($OR=4.675$)及软组织肿块($OR=8.148$)为危险因素,长横径之比($OR=0.126$)、硬化边($OR<0.001$)、边缘($OR=0.074$)及病灶主体($OR=0.070$)为保护因素。建立简易评分模型:评分=(长横比+硬化边+边缘+病灶主体)-(年龄+病理骨折+骨膜反应+软组织肿块),以上各因素每存在一个累加 1 分,若无则为 0 分。此简易评分模型 AUC 为 0.897($P<0.001$),良恶性临界值为 1.5 分,敏感度为 86.9%,特异度为 74.7%。**结论** 踝关节简易评分系统有助于影像医师对踝关节骨性结构骨肿瘤定性诊断,可提高诊断效率并提供肿瘤良恶性鉴别的客观依据。

[**关键词**] 踝关节;骨肿瘤;Logistic 分析;评分模型

[**中图分类号**] R738.1; R814 [**文献标识码**] A [**文章编号**] 1003-3289(2016)11-1735-05

踝关节骨性结构(包括胫骨远端、腓骨远端、距骨及其软骨)骨肿瘤发病率较低,但病种繁多,且影像学表现无特异性^[1-2],对其良恶性判断多依赖医师个人经验,缺乏量化指标。笔者收集踝关节骨性结构骨肿瘤患者资料,依据临床及 X 线征象鉴别踝关节骨性结构骨肿瘤良恶性,建立简易评分模型,旨在量化踝关节骨性结构骨肿瘤的诊断,以提高诊断效率。

1 资料与方法

1.1 一般资料 收集 2005 年 1 月—2016 年 1 月本院经病理证实踝关节骨性结构骨肿瘤患者 114 例,男 75 例,女 39 例,年龄 2~77 岁,平均(29.1 ± 18.3)岁;其中良性 91 例,恶性 23 例。对 114 例患者均行 X 线检查。纳入标准:经病理证实的踝关节骨性结构肿瘤并有完整临床资料。排除标准:①影像或病理诊断不明确;②资料不全,如未经病理证实或临床资料缺失。

1.2 仪器与方法 采用 Siemens Aristos NIX 数字 X 线机,采集常规踝关节正位、侧位图像。正位管电压 57 kV,管电流 5.22 mAs;侧位管电压 55 kV,管电流 5.22 mAs。体位:足内旋 10° 向上,踝关节稍跖屈;中心线:正位为内、外踝连线中点上 1 cm,侧位为内踝上 1 cm。

1.3 图像分析 由 2 名高年资肌骨影像医师双盲法阅片,结果不一时经协商得出最终诊断。观察病灶部位(胫骨远端、腓骨远端、距骨)、数量(单或多)、长横径之比($>1\text{ cm}$ 或 $\leq 1\text{ cm}$)、生长方式(膨胀性生长或浸润性生长)、钙化(有或无)、残留骨嵴(有或无)、毛玻璃样改变(有或无)、硬化边(有或无)、边缘清晰(是否)、病理性骨折(有或无)、累及关节面(有或无)、突出骨皮质(有或无)、病灶主体(骨皮质或骨髓腔内)、骨膜反应(有或无)、软组织肿块形成(有或无)及假关节形

成(有或无)。记录患者临床特征,包括性别、年龄、触及肿块(有或无)、压痛(有或无)、休息缓解(是或否)、运动加剧(有或无)、皮温升高(有或无)、夜间疼痛(有或无)及活动障碍(有或无),见图 1、2。

1.4 统计学分析 采用 SPSS 20.0 统计分析软件,对影像学 and 临床 25 个特征行 χ^2 检验,提取 $P<0.1$ 的特征;将提取的特征做为自变量,良恶性作为因变量,采用二分类 Logistic 回归分析,获取差异有统计学意义的特征;入选特征根据比值比(odds ratio, OR)分为保护因素($OR<1$)和危险因素($OR>1$),建立踝关节良恶性简易评分模型;采用 ROC 曲线评价评分模型的预报能力;以 $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

踝关节骨性结构骨肿瘤分类及分布部位见表 1。

以病理确诊的踝关节良、恶性骨肿瘤作为因变量(恶性肿瘤 $Y=1$,良性肿瘤 $Y=0$),经 χ^2 检验和二分类 Logistic 回归分析,8 个特征差异有统计学意义,分别是年龄($\chi^2=9.335$, $P=0.003$)、长横径之比($\chi^2=15.946$, $P<0.001$)、硬化边($\chi^2=18.660$, $P=0.049$)、边缘($\chi^2=23.250$, $P<0.001$)、病理性骨折($\chi^2=2.529$, $P=0.010$)、病灶主体($\chi^2=27.478$, $P<0.001$)、骨膜反应($\chi^2=7.997$, $P=0.004$)及软组织肿块($\chi^2=7.475$, $P=0.007$),余 17 个特征差异无统计学意义;其中,年龄($OR=4.545$)、病理性骨折($OR=2.567$)、骨膜反应($OR=4.675$)及软组织肿块($OR=8.148$)为危险因素,长横径之比($OR=0.126$)、硬化边($OR<0.001$)、边缘($OR=0.074$)及病灶主体($OR=0.070$)为保护因素,见表 2。简易评分模型为:评分=(长横径之比+硬化边+边缘清晰+病灶主体)-(年龄+病理性骨折+骨膜反应+软组织肿块);以上各因

表 1 踝关节骨性结构骨肿瘤分类及分布部位(例)

肿瘤分类	胫骨远端	腓骨远端	距骨	合计
骨软骨瘤	11	9	5	25
非骨化性纤维瘤	11	1	1	13
骨性纤维结构不良	10	3	—	13
骨囊肿	5	2	4	11
骨巨细胞瘤	6	—	1	7
动脉瘤样骨囊肿	3	2	2	7
骨肉瘤	7	4	—	11
软骨母细胞瘤	—	—	2	2
内生软骨瘤	1	2	1	4
骨样骨瘤	3	1	—	4
腱鞘囊肿	—	—	1	1
(骨)未分化高级别多形性肉瘤	1	—	—	1
软骨肉瘤	3	1	—	4
朗格汉斯细胞组织细胞增生症	1	1	—	2
淋巴瘤	5	2	—	7
血管瘤	1	1	—	2
合计	68	29	17	114

表 2 踝关节骨肿瘤临床及 X 线征象二分类 Logistic 回归分析结果

临床及 X 线征象	回归系数	标准误	P 值	OR 值	OR 值 95%CI
年龄	1.468	0.489	0.003	4.545	1.665, 11.324
长横径之比	-2.075	0.591	<0.001	0.126	0.039, 0.400
硬化边	-20.295	6 893.038	0.049	<0.001	0, ∞
边缘	-2.602	0.560	<0.001	0.074	0.025, 0.222
病理性骨折	0.943	0.573	0.010	2.567	0.834, 7.899
病灶主体	-2.664	0.553	<0.001	0.070	0.024, 0.206
骨膜反应	1.542	0.535	0.004	4.675	1.639, 13.335
软组织肿块	2.098	0.775	0.007	8.148	1.785, 37.199

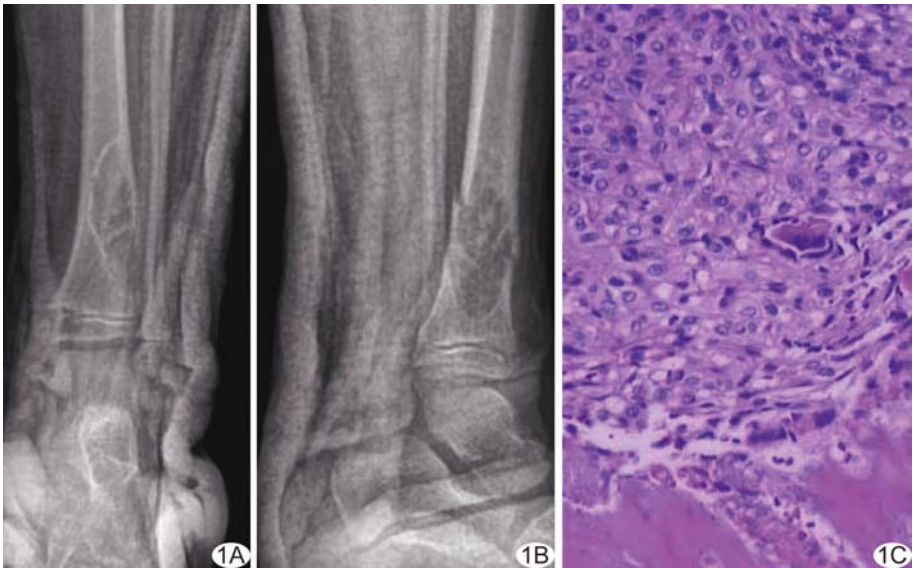


图 1 患儿男, 7 岁 A. 踝关节正位片示左侧胫骨远端内侧类圆形骨质密度减低区, 边缘清晰, 病灶长横径之比>1; B. 侧位可见硬化边及病理性骨折, 病灶主体位于骨皮质, 无骨膜反应及软组织肿块; 模型得分 3 分, 预测为良性肿瘤; C. 镜下组织内见碎骨组织, 其间纤维组织增生, 细胞异型性不明显, 病理结果为非骨化性纤维瘤(HE, ×40)

素每存在一个累加 1 分, 若无则为 0 分。

简易评分模型 ROC 曲线见图 3, 曲线下面积为 0.897 ($P<0.001$), 标准误 0.033, 95% 可信区间(confidence interval, CI)为 (0.833, 0.961)。以 1.5 分为临界值, ≥ 1.5 分为良性, < 1.5 为恶性, 简易评分模型诊断骨肿瘤良恶性的敏感度为 86.9%, 特异度为 74.7%, 阳性预测值为 46.5%, 阴性预测值为 95.8%。

3 讨论

踝关节骨性结构由胫骨远端、腓骨远端及距骨组成, 其骨肿瘤发病率明显低于其他关节, 且良性骨肿瘤及未明确性质的肿瘤多见^[1-2]。X 线检查是踝关节骨肿瘤患者初诊常规检查, 也是踝关节骨肿瘤早期定性诊断的依据之一。但踝关节骨肿瘤的 X 线良性征象及恶性征象常同时出现, 早期定性诊断较困难。本研究对踝关节骨性结构骨肿瘤患者的临床与 X 线征象进行分析。

目前二分类 Logistic 回归分析广泛应用于临床研究的各领域^[3-4], 其可从众多的复杂因素中筛选出有统计学意义的保护因素和危险因素, 并将各因素的交互作用考虑在内。本研究应用 Logistic 回归分析筛选出 8 个有统计学意义的特征, 发现 4 个保护因素(长横径之比、硬化边、边缘、病灶主体), 4 个危险因素(年龄、病理性骨折、骨膜反应及软组织肿块)。

硬化边是良性骨肿瘤的特异性指标之一^[5]。良性骨肿瘤生长缓慢, 以至宿主骨有足够时间形成反应骨, 骨修复过程较破坏过程快, 从而形成硬化边。本研究硬化边的 OR 无限接近于 0, 在所



图 2 患者女, 43 岁 A. 左胫腓骨远端见溶骨性骨质破坏区, 病灶长横径之比 >1 , 无硬化边、边缘模糊; B. 病灶主体位于骨皮质, 胫骨远端外侧可见病理性骨折, 无骨膜反应及软组织肿块; 模型得分 0 分, 预测为恶性肿瘤; C. 镜下见组织内多为软骨组织, 内有大小不等血管, 部分为较宽的血窦, 病理结果为恶性血管瘤 (HE, $\times 40$)

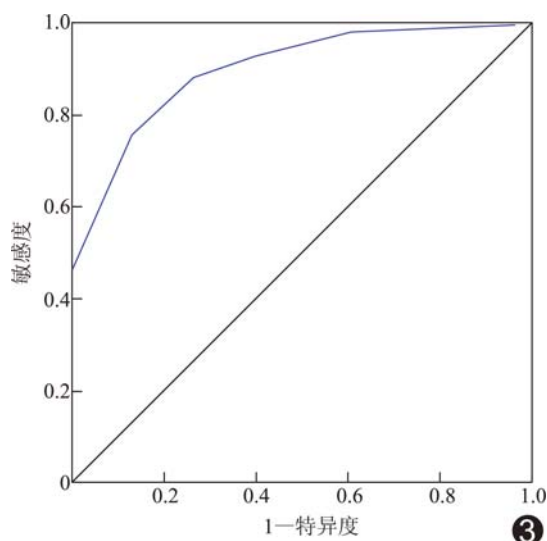


图 3 简易评分模型诊断骨肿瘤良恶性 ROC 曲线

有保护因素中最小, 提示在其他自变量不变的前提下, 保护程度很高, 笔者认为骨肿瘤出现硬化边时, 应高度考虑良性。但硬化边的标准误为 6 893.038, 提示数据误差较大, 可能因本研究样本纳入过多良性病例, 或具有硬化边的病变较多, 导致 Logistic 回归分析模型产生较大的偏倚。本研究长横径之比是否大于 1 的 OR 值为 0.126, 一定程度上可代表骨肿瘤的生长情况, 体现其生长速度及侵袭性。生长方式更多提示肿瘤为膨胀性还是浸润性生长, 本研究中该征象未纳入模型; 边缘也是鉴别骨肿瘤良恶性

的重要指标, 边缘清晰 (移行带较窄) 提示病变侵袭性较低, 而边缘不清 (移行带较宽) 往往侵袭性较强^[6], 本组病变边缘是否清晰差异有统计学意义, 提示边缘对踝关节骨性结构骨肿瘤良恶性鉴别诊断有重要影响。

软组织肿块是蔓延至骨外的软组织, 常提示病变为侵袭性, 恶性可能性大^[7]。本研究中软组织肿块的 OR 值为 8.148, 可认为当其他自变量不变时, 出现软组织肿块的骨肿瘤为恶性的危险性增加 8.148 倍, 笔者认为踝关节骨肿瘤出现软组织肿块时, 应高度怀疑恶性。骨膜反应是骨膜对骨皮质下病变的非特异性反应,

当骨膜被下方病变掀起时, 则产生新生骨, 形成骨膜反应^[8]。骨膜反应的出现可提示病变具有侵袭性, 生长速度较快。本研究中骨膜反应的 OR 值为 4.675, 回归系数为 1.542, 提示出现骨膜反应病变具有更高侵袭性, 应考虑为恶性。

一般认为二分类 Logistic 回归分析后仅关注危险因素即可^[9], 但笔者认为无论 X 线征象还是临床症状, 保护因素和危险因素均相互影响。本研究将保护因素和危险因素同时纳入评分模型, 将保护因素与危险因素给予相同的权重, 求二者的差值, 当保护因素的征象出现较危险因素多时, 评分则升高, 提示肿瘤良性可能性大, 否则反之。评分模型的曲线下面积为 0.897, 敏感度为 86.9%。特异度为 74.7%, 提示模型对踝关节骨性结构骨肿瘤的良恶性鉴别有较高的敏感度; 其阳性预测值为 46.5%, 阴性预测值为 95.8%, 表明模型提示良性病变的能力较强, 该评分模型可较为准确地预测踝关节骨肿瘤的良恶性, 可作为影像及临床医师对踝关节骨肿瘤初诊患者早期定性的辅助手段。

本研究的不足: 回顾性研究, 存在选择性偏倚及样本随机性不足; 样本来源为单中心, 良性病例远多于恶性病例, 可能导致征象获取的权重发生偏倚, 模型提取的征象不一定完全代表骨肿瘤真实权重。

总之, 踝关节骨性结构骨肿瘤的临床及 X 线特征建立的简易评分模型可较准确地预测初诊患者的良恶性, 提高影像医师的诊断效率。

[参考文献]

- [1] 张小军,王臻,李靖. 3409 例骨关节肿瘤与瘤样病变统计分析. 中国骨肿瘤骨病, 2010, 9(3):189-195.
- [2] King LS. Bone tumors: General aspects and data on 3,987 cases. J Am Med Associ, 1967, 199(3):536.
- [3] Chou WC, Yeh K, Peng MT, et al. Development and validation of a prognostic score to predict survival in adult patients with solid tumors and bone marrow metastases. Medicine (Baltimore), 2015, 94(23):e966.
- [4] Choi YJ, Park SY, Cho WK, et al. Factors related to decreased bone mineral density in childhood cancer survivors. J Korean Med Sci, 2013, 28(11):1632-1638.
- [5] 程克斌,程晓光. 肌骨系统 X 线平片基本征象. 中国医学影像技术, 2009, 25(12):2315-2318.
- [6] Bhattacharya IS, Hoskin PJ. Stereotactic body radiotherapy for spinal and bone metastases. Clin Onco (R Coll Radiol), 2015, 27(5):298-306.
- [7] Sundaram M, McLeod RA. MR Imaging of tumors and tumorlike lesions of bone and soft tissue. AJR Am J Roentgenol, 1990, 155(4):817-824.
- [8] Kudawara I, Yoshikawa H, Araki N, et al. Intramuscular haemangioma adjacent to the bone surface with periosteal reaction. J Bone Joint Surg Br, 2001, 83(5):659-662.
- [9] Kim SH, Shin KH, Kim HY, et al. Postoperative nomogram to predict the probability of metastasis in Enneking stage II B extremity osteosarcoma. BMC Cancer, 2014, 14:666.

Low grade cystic fibromyxoid sarcoma of temporal muscle: Case report 颞肌内囊性低度恶性纤维黏液样肉瘤 1 例

李 飞,任翠萍,程敬亮

(郑州大学第一附属医院磁共振科,河南 郑州 450052)

[Key words] Fibromyxoid sarcoma; Temporal muscle [关键词] 纤维黏液样肉瘤; 颞肌

DOI:10.13929/j.1003-3289.2016.11.030

[中图分类号] R738.6; R445.2 [文献标识码] B [文章编号] 1003-3289(2016)11-1739-01

患者女,42岁,因“发现右颞部肿物18个月,出现压痛半月余”于我院就诊。查体:右颞部可见隆起似“杏核”大小肿物,活动度差,轻度压痛,肿物表面及周围皮肤无明显异常。MRI:平扫见右侧颞肌内椭圆形长T1长T2信号肿物(图1A),约27.85 mm×28.56 mm×47.12 mm,液体抑制翻转恢复(fluid attenuation inverse recovery, FLAIR)序列呈不均匀低信号,DWI未见明显扩散受限,ADC图

呈高信号,病变周围软组织稍增厚,FLAIR序列呈稍高信号;增强扫描未见明显强化(图1B)。影像诊断:考虑良性囊肿性病变。随后患者返回当地医院接受手术,开颅后因病变成分复杂,再次转至我院,急诊行右颞部肿物切除术,术中见颞部肿瘤组织质韧,呈灰红色,血供较丰富,有包膜,与肌肉及骨膜组织粘连紧密,将肿物与周围组织分离后完整切除。术后病理(图2):低度恶性纤维黏液样肉瘤(low-grade fibromyxoid sarcoma, LGFMS)。免疫组化:CD34(-),SMA(部分-),S-100(-),

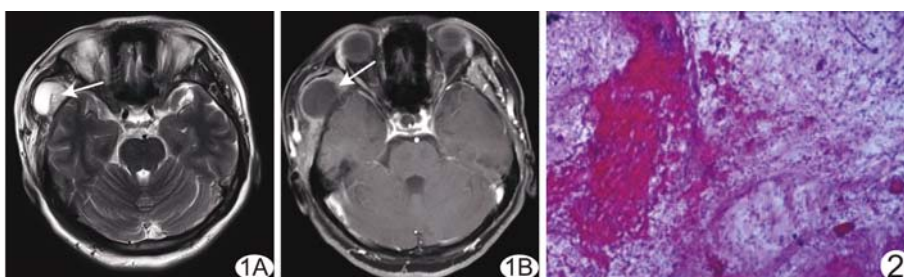


图1 颞肌内囊性低度恶性纤维黏液样肉瘤 MRI 图像 A. T2WI 平扫; B. T1WI 增强扫描 (箭示病灶) 图2 病理图(HE, ×10)

Desmin(-), Ki-67(阳性细胞约1%), β -catenin(-)。术后2个月复查头部MRI未见复发。

讨论 LGFMS是一种罕见的软组织肿瘤,细胞形态学表现为良性,但具有局部复发和远处转移的潜能,好发于四肢、躯干和胸部的深部软组织,发生于颞肌的囊性 LGFMS 临床罕见。病理学上 LGFMS 由黏液区和纤维区组成,可因二者比例不同而呈现不同的影像学表现,并可分为实性、囊实性、囊性3种类型。其中囊性型是由于病变发生完全的黏液变性所形成,多发生于胸壁、肩背部、盆腔, MRI 表现为边界清晰的囊性病变,无壁结节,增强扫描呈环形强化或无强化,易误诊为良性囊肿。本例提示当发现肌间隙或肌肉内形似良性囊肿性病变时,应考虑本病可能,术前穿刺活检有助于制定更为合理的手术方案。

[第一作者] 李飞(1990—),女,河南南阳人,在读硕士。

E-mail: 382463086@qq.com

[收稿日期] 2016-05-23 [修回日期] 2016-08-16