

✧ 头颈部影像学

Diagnostic value of salivary gland ultrasonography
scoring systems in Sjögren's syndromeWANG Jingling¹, WU Rui², ZHANG Weiping¹, CHEN Li^{1*}(1. Department of Ultrasound, 2. Department of Rheumatology, the First Affiliated
Hospital of Nanchang University, Nanchang 330006, China)

[Abstract] **Objective** To explore the value of salivary glands ultrasonography in diagnosis of Sjögren's syndrome (SS). **Methods** Ninety-two patients with symptoms of xerophthalmia or xerostomia were enrolled, and 42 of them were divided to the SS group and the others to non-SS group. The bilateral parotid and submandibular gland of all patients were examined with ultrasonography, then the ultrasonographic features of bilateral salivary glands were obtained. The imaging features of salivary glands were evaluated by a semi-quantitative scoring system. The differences of ultrasonography scores between SS group and non-SS group were compared. The value of semi-quantitative scoring system in diagnosis of SS was analyzed. **Results** Salivary gland ultrasonic manifestations of 38 patients (38/50, 76.00%) in non-SS group were normal, whose ultrasonographic scores were 0. Whereas the ultrasound of 32 patients (32/42, 76.19%) were abnormalities in SS group, whose ultrasonographic scores were ≥ 1 . Ultrasonographic scores in SS group were higher than that of non-SS group ($P < 0.001$). The area under the ROC curve of ultrasound score in diagnosis of SS was 0.805 ($P < 0.001$, 95% confidence interval was [0.711, 0.899]). When the cutoff value of the scores was 2, the sensitivity and specificity were 59.5%, and 92.0%. **Conclusion** The ultrasonographic scoring of salivary glands can provide a semi-quantitative index for inhomogeneity of the salivary glands, which has significant value in the diagnosis of SS.

[Key words] Sjögren's syndrome; Ultrasonography; Salivary glands

DOI:10.13929/j.1003-3289.201608067

唾液腺超声评分法诊断干燥综合征的价值

王婧玲¹, 吴锐², 张卫平¹, 陈莉^{1*}

(1. 南昌大学第一附属医院超声科, 2. 风湿免疫科, 江西 南昌 330006)

[摘要] **目的** 探讨唾液腺超声评分法对干燥综合征(SS)的诊断价值。**方法** 收集我院风湿免疫科门诊或住院的口干、眼干患者 92 例, 将患者分为 SS 组 42 例和非 SS 组 50 例。对所有患者双侧腮腺及颌下腺进行二维超声检查, 获得双侧腮腺及颌下腺的声像图, 采用半定量评分方法对其进行评分。比较两组唾液腺超声评分的差异并分析其诊断 SS 的价值。**结果** 非 SS 组中 38 例(38/50, 76.00%)唾液腺超声表现正常, 评为 0 分, SS 组 32 例(32/42, 76.19%)唾液腺超声评分 ≥ 1 分。SS 组唾液腺超声评分高于非 SS 组 ($P < 0.001$)。唾液腺超声评分诊断 SS 的 ROC 曲线下面积为 0.805 [$P < 0.001$, 95% 可信区间(0.711, 0.899)], 以 2 分为临界值诊断 SS 敏感度为 59.5%, 特异度为 92.0%。**结论** 唾液腺超声评分法可为唾液腺回声的均匀程度提供半定量指标, 在诊断 SS 中有重要价值。

[关键词] 干燥综合征; 超声检查; 唾液腺**[中图分类号]** R593.2; R445.1 **[文献标识码]** A **[文章编号]** 1003-3289(2017)03-0394-05

[第一作者] 王婧玲(1991—), 女, 江西鹰潭人, 在读硕士, 医师。研究方向: 超声诊断。E-mail: 1067150764@qq.com

[通信作者] 陈莉, 南昌大学第一附属医院超声科, 330006。E-mail: 1727237899@qq.com

[收稿日期] 2016-08-16 [修回日期] 2016-12-24

干燥综合征(Sjögren's syndrome, SS)是以口干、眼干为主要临床表现的自身免疫性疾病。目前对其诊断主要依据眼部和口腔症状、眼部和唾液腺功能检查、抗 SS-A/B 抗体和唇腺活检显示淋巴细胞灶。对 SS 的诊断程序较为繁琐,且部分检查有创,不易被患者所接受。本研究旨在对唾液腺进行超声检查,观察并比较 SS 与非 SS 患者唾液腺回声均匀程度的差异,探讨唾液腺超声半定量评分方法诊断 SS 的价值。

1 资料与方法

1.1 一般资料 收集 2015 年 7 月—2016 年 7 月本院风湿免疫科门诊或住院的口干、眼干患者 92 例。依据 2002 年欧美国际联盟(American-European Consensus Group, AECG)诊断标准^[1],将患者分为 SS 组($n=42$)及非 SS 组($n=50$),其中 SS 组男 1 例,女 41 例,年龄 26~70 岁,平均(50.3 ± 11.9)岁;非 SS 组男 1 例,女 49 例,年龄 26~60 岁,平均(47.4 ± 12.5)岁。排除标准:①任意一侧腮腺、颌下腺肿瘤病史或手术史;②唾液腺急性或慢性炎症;③头颈部放疗或化疗史;④涎石症病史;⑤结节病;⑥有服用抗乙酰胆碱药物史。所有受检者在检查前均签署知情同意书。

1.2 仪器与方法 采用 Philips iU22 彩色多普勒超声诊断仪,高频线阵探头,频率 5~12 MHz。嘱患者取仰卧位,检查一侧唾液腺时头偏向对侧,取腮腺长轴和短轴及颌下腺长轴切面观察内部回声。

1.3 主观评分^[2] 由 2 名有经验的超声医师采用盲法按照以下方法对图像进行分析,当意见不一致时,由上级医师会诊获得统一意见后做出最后评分。0 分,腺体回声均匀;1 分,腺体回声轻度不均匀(孤立的低回声区);2 分,腺体回声明显不均匀(散在分布大小不等的低回声区伴点状或线状高回声);3 分,腺体回声极度不均匀(大的圆形或相互融合的低回声区,线状高回声,多发囊性回声或钙化)。正常唾液腺超声评为 0 分,左右侧腺体评分不一致时,以高分侧评分为最终分数。

1.4 统计学分析 采用 SPSS 20.0 统计分析软件,计数资料(性别构成比)比较采用 χ^2 检验;年龄比较采用两独立样本 t 检验;唾液腺超声评分以中位数(四

分位数间距)表示,两组间比较采用 Mann-Whitney U 检验; $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。绘制唾液腺超声检查评分诊断 SS 的 ROC 曲线,获得曲线下面积,获得其最佳截断值并分析其诊断 SS 的效能。

2 结果

SS 组及非 SS 组性别构成比及年龄差异均无统计学意义(P 均 > 0.05)。

非 SS 组 38 例(38/50, 76.00%)唾液腺超声表现正常,评为 0 分;SS 组 32 例(32/42, 76.19%)唾液腺超声评分 ≥ 1 分。SS 组唾液腺总评分 0~5 分,中位数为 2 分(四分位数间距 3.25),非 SS 组唾液腺总评分 0~3 分,中位数为 0 分(四分位数间距 1),差异有统计学意义($P < 0.001$),见图 1、2。

唾液腺超声评分诊断 SS 的 ROC 曲下面积为 0.805 [$P < 0.001$, 95% 可信区间 (0.711, 0.899)];图 3],以 2 分为临界值诊断 SS 的敏感度为 59.5%,特异度为 92.0%,Youden 指数为 51.5%。

3 讨论

SS 是以唾液腺和泪腺功能减退为特征,并可累及多系统的自身免疫性疾病^[3],分为原发性干燥综合征(primary SS)及继发性干燥综合征(secondary SS),sSS 是继发于其他自身免疫性疾病(如类风湿性关节炎、系统性红斑狼疮等)的 SS。SS 主要由针对唾液腺和泪腺组织的炎症和自身抗体反应介导^[4],其特征性改变为泪腺和唾液腺等外分泌腺功能减退,引起口干、眼干,同时还可累及肺、肾脏、甲状腺等出现疲劳、疼痛及关节炎等症状,由于 SS 患者的症状轻微及缺乏特

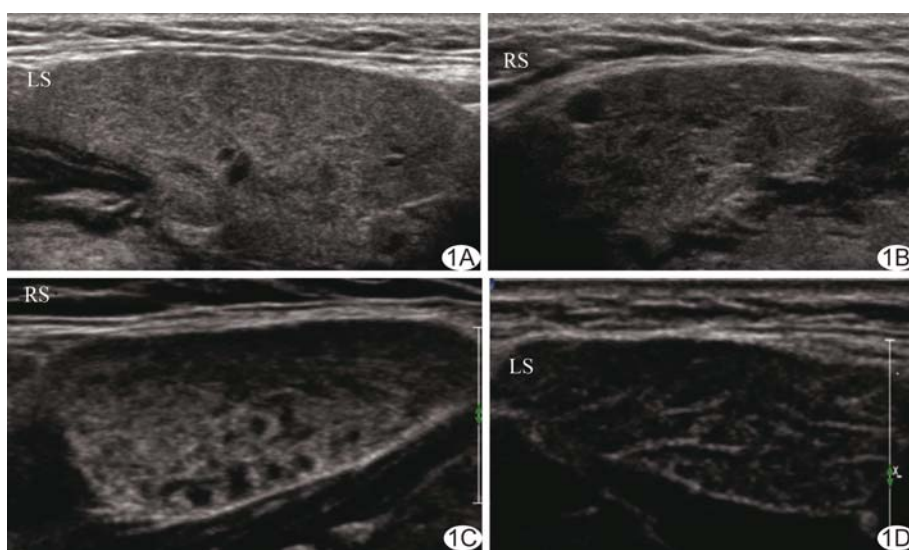


图 1 SS 组颌下腺超声评分 A. 0 分,正常颌下腺; B. 1 分,颌下腺回声轻度不均匀; C. 2 分,颌下腺回声明显不均匀; D. 3 分,颌下腺回声极度不均匀 (LS:左侧颌下腺;RS:右侧颌下腺)

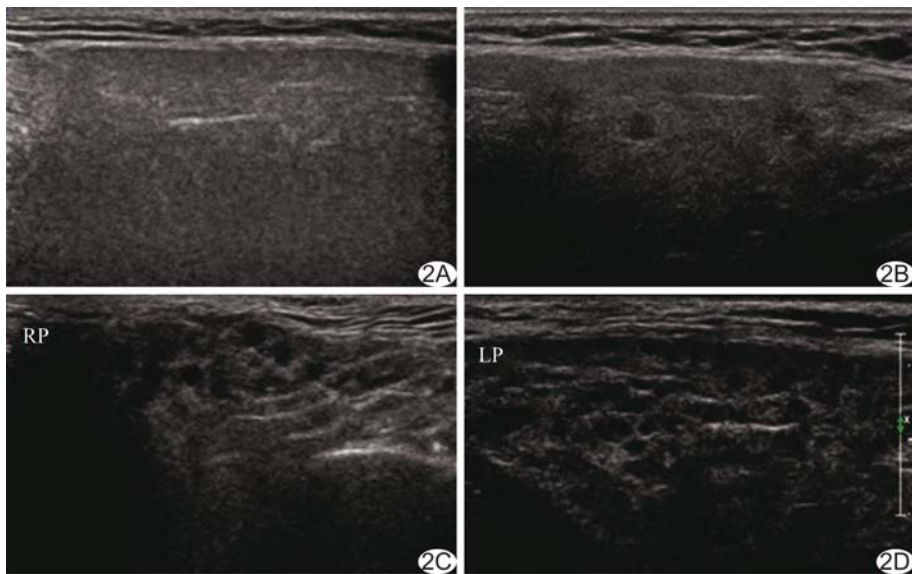


图2 SS组腮腺超声评分 A. 0分,正常腮腺; B. 1分,腮腺回声轻度不均匀; C. 2分,腮腺回声明显不均匀; D. 3分,腮腺回声极度不均匀 (RP:右侧腮腺; LP:左侧腮腺)

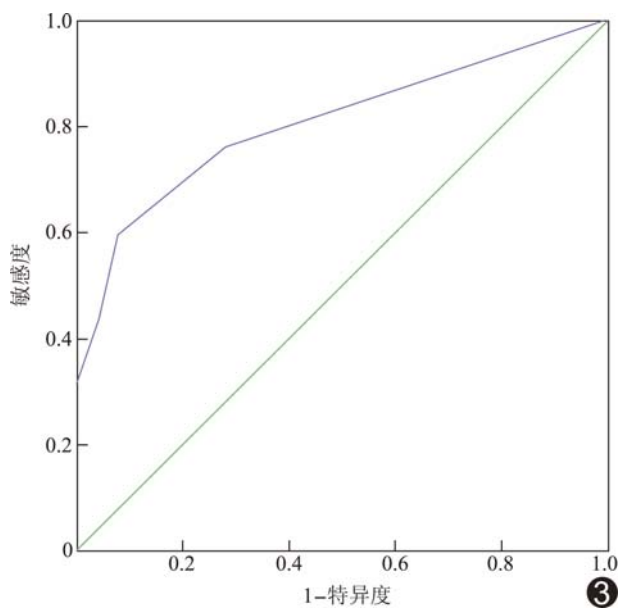


图3 唾液腺超声评分诊断SS的ROC曲线

异性,故许多患者从症状出现到就诊间隔6~7年,严重影响生活质量。因而早期发现并治疗SS具有重要意义。

目前尚缺乏准确诊断SS的金标准,其诊断需联合风湿免疫科、眼科及口腔科^[3],主要包括眼干、口干、眼部体征(Schirmer试验、角膜荧光染色)的检查,以及组织学检查(唇腺活检)、唾液腺受损(涎流率、腮腺造影、唾液腺核素显像)和血清学抗体(抗SSA/B抗体)检查。眼干及口干有较强的主观性,且易漏诊无症状的患者。涎流率、唾液腺显像、Schirmer试验虽然

对于评价唾液腺和泪腺功能有重要价值,但其对诊断SS缺乏特异度。唇腺活检出现淋巴细胞灶对诊断SS具有较高的特异度^[5],但为一种有创检查且合并永久性的局部感觉丧失而不易被患者所接受。超声作为一种常规检查方法,具有无创、无辐射、操作方便等优势,其在SS中的应用已经得到越来越多的重视。

正常涎腺的常规超声表现为回声强度与甲状腺相似的实性组织,但回声高于邻近肌肉,内部回声均匀,其内偶见单个淋巴结。Bradus等^[6]报道SS患者的特征性声像图表现为双侧涎腺内出现低回声区。二维超声主要观察涎

腺大小、回声高低及回声不均匀性的程度及低回声区大小。Hocevar等^[7]研究表明唾液腺超声评分用于观察SS患者的唾液腺具有很高的可靠性及可重复性。

本研究中非SS组中唾液腺38例(38/50, 76.00%)表现为回声均匀,评为0分,SS组32例(32/42, 76.19%)唾液腺异常,SS患者唾液腺超声表现为不同程度的回声不均匀。SS组唾液腺超声评分高于非SS组,差异有统计学意义($P < 0.001$),提示唾液腺回声的不均匀有助于鉴别SS与非SS,主要与SS的病理基础有关。SS患者唾液腺上皮细胞发生脂肪变性,同时淋巴细胞浸润唾液腺导管上皮细胞,导管甚至扩张,腺体细胞被纤维组织取代,最后腺体纤维化萎缩^[8-9],因而在SS患者中其唾液腺会出现低回声区甚至线状高回声。非SS组2例患者唾液腺出现明显不均匀回声评为3分(均为腮腺1分、颌下腺2分),患者主要以口干为主而无眼干,其唾液腺活检及涎腺受损,虽然不符合2002年AECG诊断标准但符合2012年美国风湿病学会分类(American College of Rheumatology, ACR)诊断标准^[3]。Takagi等^[10]研究表明唾液腺超声检查可替代ACR指南3项中的任意一项(唇腺活检、角膜染色、血清学检查)作为诊断SS的辅助检查。Takagi等^[11]另一项研究还发现唾液腺超声评分越高,其唾液流率越低且对治疗的反应越差。

本研究采用6分评分法,以2分为临界值诊断SS敏感度为59.5%,较既往研究^[10,12-14]低(75.3%~90.0%),主要因为本研究只针对回声的均匀性对唾液

腺进行评分,而在既往研究^[10,12-14]评分系统除包括腺体回声的均匀性外,还包括腺体大小、腺体回声的高低、腺体内低回声区的大小以及腺体的边缘,不同的评分系统其敏感度存在一定的差异,Zhang 等^[14]研究表明 0~48 分评分系统较 0~16 分评分敏感度高。本研究中以 2 分为临界值诊断 SS 特异度达 92.0%,与既往研究^[10,13-16]相符(90.0%~98.7%),但明显高于 Salaffi 等^[12,17]的研究(78.4%~83.5%),分析原因为研究人群的差异所致,后者纳入口干、眼干患者,但未排除涎腺炎、涎腺肿瘤等可引起唾液腺回声不均匀的患者,使其特异度降低。Luciano 等^[18]研究发现唾液腺超声表现还可鉴别 SS 与未分化结缔组织病,且唾液腺评分与唇腺活检有一定相关性,唇腺活检显示淋巴细胞浸润灶越多者其唾液腺分值越高。本研究中唾液腺超声评分诊断 SS 的最佳临界值为 2 分,推测当腮腺及颌下腺同时出现轻度回声不均匀或腮腺、颌下腺任一腺体出现明显回声不均匀时可提示 SS。许多非免疫情况如细菌或病毒感染、脓肿和肿瘤等也可导致唾液腺实质出现低回声引起回声不均匀,脓肿或肿瘤等引起回声不均匀多为单侧单腺体,而涎腺炎症性病变时可为双侧但均有较明显的临床体征,但很少同时累及腮腺和颌下腺,可资鉴别。

本研究的不足及展望:本文评分系统只包含腺体回声的均匀性而未对唾液腺其他的超声特征进行分析,在进行结果分析时检查者的主观性可能会对结果产生影响。此外,有研究^[19-21]表明多普勒超声、CEUS 及超声弹性成像在 SS 诊断中有重要价值,本研究未采用其他类型的超声进行分析,有待联合其他超声成像方法以提高诊断 SS 的准确率。

总之,SS 患者的唾液腺表现为回声不均匀,唾液腺超声评分法诊断 SS 有较高的特异度,可为唾液腺回声的均匀程度提供半定量指标,在 SS 诊断中具有一定价值。

[参考文献]

- [1] 赵岩,贾宁,魏丽,等.原发性干燥综合征 2002 年国际分类(诊断)标准的临床验证.中华风湿病学杂志,2003,7(9):537-540.
- [2] Baldini C, Luciano N, Tarantini G, et al. Salivary gland ultrasonography: A highly specific tool for the early diagnosis of primary Sjögren's syndrome. *Arthritis Res Ther*, 2015,17(1):146-163.
- [3] Shiboski SC, Shiboski CH, Criswell LA, et al. American College of Rheumatology classification criteria for Sjögren's syndrome: A data-driven, expert consensus approach in the Sjögren's International Collaborative Clinical Alliance cohort. *Arthritis Care Res*, 2012,64(4):475-487.
- [4] Brandt JE, Priori R, Valesini G, et al. Sex differences in Sjögren's syndrome: A comprehensive review of immune mechanisms. *Biol Sex Differ*, 2015,6:19.
- [5] Giovelli RA, Santos MC, Serranoé V, et al. Clinical characteristics and biopsy accuracy in suspected cases of Sjögren's syndrome referred to labial salivary gland biopsy. *BMC Musculoskelet Disord*, 2015,16(1):30-36.
- [6] Bradus RJ, Hybarger P, Gooding GA. Parotid gland: US findings in Sjogren syndrome. *Work in Progress. Radiology*, 1988, 169(3):749-751.
- [7] Hocevar A, Rainer S, Rozman B, et al. Ultrasonographic changes of major salivary glands in primary Sjögren's syndrome. Evaluation of a novel scoring system. *Eur J Radiol*, 2007,63(3):379-383.
- [8] Pereira DL, Vilela VS, Dos Santos TC, et al. Clinical and laboratory profile and histological features on minor salivary glands from patients under investigation for Sjogren's syndrome. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*, 2014,19(3):e237-e241.
- [9] Costa S, Quintin-Roue I, Lesourd A, et al. Reliability of histopathological salivary gland biopsy assessment in Sjogren's syndrome: A multicentre cohort study. *Rheumatology*, 2015,54(6):1056-1064.
- [10] Takagi Y, Sumi M, Nakamura H, et al. Ultrasonography as an additional item in the American College of Rheumatology classification of Sjogren's syndrome. *Rheumatology*, 2014, 53(11):1977-1983.
- [11] Takagi Y, Sumi M, Nakamura H, et al. Salivary gland ultrasonography as a primary imaging tool for predicting efficacy of xerostomia treatment in patients with Sjögren's syndrome. *Rheumatology*, 2016,55(2):237-245.
- [12] Salaffi F, Carotti M, Iagnocco A, et al. Ultrasonography of salivary glands in primary Sjogren's syndrome: A comparison with contrast sialography and scintigraphy. *Rheumatology*, 2008, 47(8):1244-1249.
- [13] Milic VD, Petrovic RR, Boricic IV, et al. Major salivary gland sonography in Sjögren's syndrome: Diagnostic value of a novel ultrasonography score (0-12) for parenchymal inhomogeneity. *Scandinavian J Rheumatol*, 2010,39(2):160-166.
- [14] Zhang X, Zhang S, He J, et al. Ultrasonographic evaluation of major salivary glands in primary Sjögren's syndrome: Comparison of two scoring systems. *Rheumatology*, 2015,54(9):1680-1687.
- [15] 徐钟慧,王鸿琳,杜德顺,等.超声诊断干燥综合征腮腺病变.中国医学影像技术,2009,25(3):401-404.
- [16] 王婧玲,陈莉.超声诊断干燥综合征研究进展.中国医学影像技术,2016,32(8):1306-1309.
- [17] Obinata K, Sato T, Ohmori K, et al. A comparison of diagnostic tools for Sjögren syndrome, with emphasis on sialography, histopathology, and ultrasonography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2010,109(1):129-134.
- [18] Luciano N, Baldini C, Tarantini G, et al. Ultrasonography of major salivary glands: A highly specific tool for distinguishing primary Sjögren's syndrome from undifferentiated connective tissue diseases. *Rheumatology (Oxford)*, 2015, 54(12):

2198-2204.

- [19] 徐钟慧,王鸿琳,杜德顺,等.多普勒超声观察干燥综合征腮腺病变的血流动力学特征.中国医学影像技术,2010,26(9):1674-1677.
- [20] Giuseppetti GM, Argalia G, Salera D, et al. Ultrasonographic

contrast-enhanced study of sicca syndrome. Eur J Radiol, 2005, 54(2):225-232.

- [21] Knopf A, Hofauer B, Thürmel K, et al. Diagnostic utility of acoustic radiation force impulse (ARFI) imaging in primary Sjögren's syndrome. Eur J Radiol, 2015, 25(10):3027-3034.

Subtentorial intraparenchymal anaplastic ependymoma in cerebellum: Case report

幕下小脑实质间变性室管膜瘤 1 例

吕青青,张 勇,程敬亮,汪卫建

(郑州大学第一附属医院核磁共振科,河南 郑州 450052)

[Key words] Subtentorial; Anaplastic ependymoma; Magnetic resonance imaging [关键词] 幕下;间变性室管膜瘤;磁共振成像

DOI:10.13929/j.1003-3289.201609097

[中图分类号] R739.41; R445.2 [文献标识码] B [文章编号] 1003-3289(2017)03-0398-01

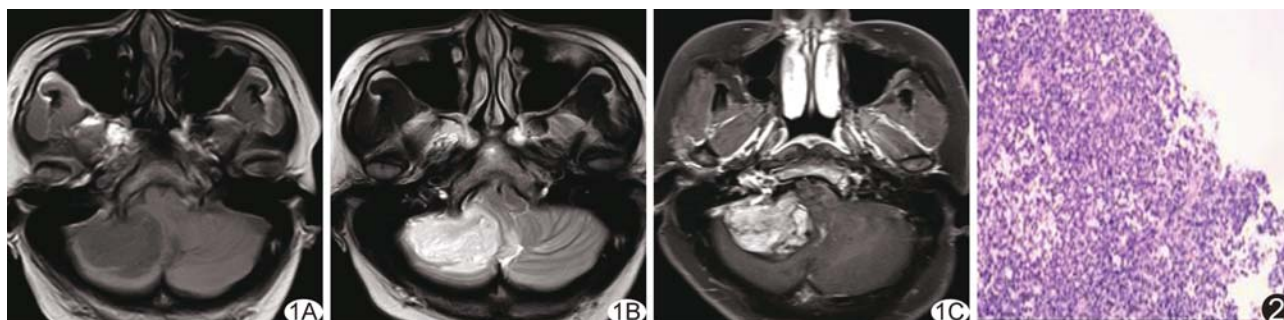


图 1 幕下小脑实质间变性室管膜瘤 MR 图像 A、B. 轴位 T1WI 及 T2WI 示右侧小脑半球团块状长 T1 混杂长 T2 信号影; C. 增强扫描示病灶明显强化 图 2 病理图 瘤细胞呈“菊形”团样,瘤细胞异形明显,核分裂活跃,围绕血管排列(HE, ×100)

患者女,41 岁,因“头痛、头昏 20 天,双下肢无法站立 2 天”就诊。神经系统检查及实验室检查无异常,初步诊断为“精神障碍”。MR 检查:右侧小脑半球可见团块状长 T1 混杂长 T2 信号(图 1A、1B),周边见片状长 T1 长 T2 水肿信号,FLAIR 呈高信号,DWI 见高信号,小脑中脚及 4 脑室明显受压变形;增强后右侧小脑半球病变呈团块状明显强化,边界清晰,约 4.0 cm×3.9 cm×4.3 cm(图 1C)。MRI 诊断:室管膜瘤。行后正中右拐入路肿瘤切除术,术中见肿瘤位于右侧小脑及枕骨大孔,呈灰红色,质软,血供丰富,边界不清。术后大体病理示肿瘤呈灰白灰红碎组织,镜下示瘤细胞呈“菊形”团样,瘤细胞异形明显,核分裂活跃,围绕血管排列(图 2)。免疫组化:GFAP(局部+),S-100(+),Oligo-2(散在+),EMA(-/+),NSE(-),Syn(-),CD99(-/+),FLI-1(+/-),CD56(+),CK(-),CK-L(-),Ki-67(60%+),LCA(-)。病理诊断:右侧小脑半球间变性室管膜瘤(WHO III

级)。

讨论 脑实质室管膜瘤是发生于脑室系统外,起源于胚胎残余的室管膜静止细胞的肿瘤。好发于儿童及青少年,少数可见于 50 岁左右的中老年人。幕下脑实质间变性室管膜瘤多发生于小脑半球,多为实性,瘤内出血少见;MRI 多呈等或稍长 T1 信号,等或稍长 T2 信号,肿瘤周围可见水肿;增强扫描肿瘤实质成分呈明显强化,中心坏死区无强化;常与脑室关系密切,易压迫脑室造成梗阻性脑积水。本例患者肿瘤发病年龄和部位均不典型,MRI 表现与上述表现基本相符。幕下脑实质间变性室管膜瘤需与髓母细胞瘤、脑膜瘤等相鉴别:髓母细胞瘤为儿童后颅窝常见恶性肿瘤,囊变坏死少见,增强扫描后强化较均匀,常通过脑脊液播散转移;脑膜瘤形态较规整,边缘常清晰,信号较均匀,基底部常与邻近脑膜相接触,增强扫描可见脑膜尾征。幕下脑实质内的室管膜瘤影像表现虽有一些特征,但因发病率低,发病部位少见,误诊率高;若 MRI 表现为幕下脑实质内实性肿块,呈长 T1 长 T2 信号,增强扫描呈明显强化,应考虑幕下脑实质内室管膜瘤的可能。

[第一作者] 吕青青(1993—),女,河南商丘人,在读硕士。

E-mail: 478071645@qq.com

[收稿日期] 2016-09-21 [修回日期] 2016-11-24