

✧ 骨骼肌肉影像学

MRI evaluation of early aggressiveness of low grade central chondrosarcoma in long bones

CHEN Jiming^{1*}, YAN Xiufang¹, ZHAI Jian¹, LU Linming², ZHU Qing¹,
XING Tao¹, ZHANG Aijuan¹, WAN Qiang¹, SHAO Ying¹
(1. Medical Imaging Center, 2. Department of Pathology, Yijishan
Hospital of Wannan Medical College, Wuhu 241001, China)

[Abstract] **Objective** To explore the diagnostic value of MRI in evaluating early aggressiveness of low grade central chondrosarcoma in long bones. **Methods** Data of 11 patients with histopathologically proved WHO grade I central chondrosarcoma in long bones were reviewed. All patients underwent conventional MRI within 2 weeks before operation. MRI findings of intracortical and intramedullary infiltration of chondrosarcoma were observed. Compared with surgical pathology, *Kappa* test was used to evaluate the consistency of MRI with pathology in diagnosis of early invasiveness of chondrosarcoma. The sensitivity, specificity and accuracy of MRI in diagnosis of intracortical and intramedullary infiltration of chondrosarcoma were calculated. **Results** MRI showed 9 cases of chondrosarcoma with intracortical infiltration, among them 6 cases showed different degrees of scallop-like depression in the inner bone cortex, 3 cases had different forms of worm-like destruction in the inner bone cortex. Four cases of intramedullary infiltration showed blurred tumor edges and abnormal signals in the bone marrow around the tumors. MRI diagnosis of early aggressiveness of intramedullary and intracortical infiltration had good consistency with histopathological findings (*Kappa*=0.441, 0.621, both $P<0.05$). The sensitivity of MRI in diagnosis of intracortical and intramedullary infiltration was 90.00% (9/10) and 60.00% (3/5), specificity was 100% (1/1) and 83.33% (5/6), accuracy was 90.91% (10/11) and 72.73% (8/11), respectively. **Conclusion** MRI plays an important role in detecting early aggressiveness of central chondrosarcoma in long bones.

[Keywords] chondrosarcoma; diagnosis, differential; magnetic resonance imaging

DOI:10.13929/j.1003-3289.201812080

MRI 评价长骨中心型低度恶性软骨肉瘤 早期侵袭性

陈基明^{1*}, 颜秀芳¹, 翟建¹, 卢林明², 朱晴¹,
邢滔¹, 张爱娟¹, 万强¹, 邵颖¹

(1. 皖南医学院弋矶山医院医学影像中心, 2. 病理科, 安徽 芜湖 241001)

[摘要] **目的** 探讨 MRI 评价长骨中心型低度恶性软骨肉瘤早期侵袭性的价值。 **方法** 回顾性分析 11 例经手术病理证实为 WHO I 级长骨中心型软骨肉瘤患者的资料, 患者均于手术前 2 周内接受常规 MRI。观察软骨肉瘤骨皮质内层浸润及髓腔内浸润的 MRI 表现。与手术病理对照, 采用 *Kappa* 检验评价 MRI 诊断软骨肉瘤早期侵袭性与病理结果的一致性; 计算 MRI 诊断软骨肉瘤骨皮质内层浸润及髓腔内浸润的敏感度、特异度和准确率。 **结果** MRI 显示 9 例发生软骨肉瘤骨皮质内层浸润, 其中 6 例骨皮质内层见不同程度扇贝样凹陷, 3 例骨皮质内层不同形式虫蚀样破坏; 4 例骨髓腔内

[第一作者] 陈基明(1965—), 男, 安徽芜湖人, 本科, 主任医师。研究方向: 骨骼肌肉系统影像学。

[通信作者] 陈基明, 皖南医学院弋矶山医院医学影像中心, 241001。E-mail: yjsyycjm@126.com

[收稿日期] 2018-12-13 **[修回日期]** 2019-04-03

浸润,表现为肿瘤边缘模糊、肿瘤周围骨髓出现异常信号。MRI 诊断软骨肉瘤早期骨髓腔浸润和骨皮质浸润与病理结果的一致性较好($Kappa=0.441, 0.621, P$ 均 <0.05),诊断肿瘤骨皮质内层及髓腔内浸润的敏感度分别为 90.00%(9/10)、60.00%(3/5),特异度为 100%(1/1)、83.33%(5/6),准确率为 90.91%(10/11)、72.73%(8/11)。结论 MRI 对长骨中心型软骨肉瘤早期侵袭性有较高诊断价值。

[关键词] 软骨肉瘤;诊断;鉴别;磁共振成像

[中图分类号] R738.1; R445.2 [文献标识码] A [文章编号] 1003-3289(2019)06-0895-04

软骨肉瘤是发生率仅次于骨肉瘤的骨恶性肿瘤,根据发生部位分为中心型和周围型;组织学分为 3 级,Ⅰ级软骨肉瘤较常见且具有低度恶性,2013 年 WHO 骨肿瘤分类将其归为中间型(局部侵袭性)。中心型Ⅰ级软骨肉瘤多见于长管状骨,与良性内生性软骨瘤的细胞学和组织学表现相似,多难以鉴别。影像学诊断中心型低级别软骨肉瘤的关键是准确判定肿瘤是否具有侵袭性生长特征,而确定早期侵袭性尤其重要。欧洲肿瘤内科学会的临床实践指南推荐采用 X 线平片和 MR 检查^[1]对软骨肉瘤进行形态学评估。X 线平片易显示软骨基质形成的特征性钙化和骨化。MRI 软组织分辨率高,对显示软骨肉瘤骨髓腔、骨皮质和软组织浸润具有重要价值^[2-4]。本研究探讨术前 MRI 对长骨中心型低级别软骨肉瘤早期侵袭性的诊断价值。

1 资料与方法

1.1 一般资料 回顾性分析 2010 年 1 月—2018 年 10 月 11 例于我院经手术病理证实为 WHO Ⅰ级长骨中心型软骨肉瘤患者的资料,男 7 例,女 4 例,年龄 36~70 岁,平均(52.3±10.5)岁。纳入标准:①接受 MR 检查,且与手术间隔时间 ≤ 2 周;②接受节段性肿瘤骨切除术,病理结果显示病变仅侵蚀密质骨内层。排除标准:①位于手足短管状骨、中轴骨等部位的软骨肉瘤,长骨周围型、继发性及术后复发性软骨肉瘤;②仅经活检或刮除术证实的软骨肉瘤;③图像质量不佳,影响观察分析。11 例中,软骨肉瘤发生于肱骨 3 例、股骨 4 例、胫骨 4 例;其中 9 例因患肢疼痛、不适就诊,2 例因骨关节其他病变接受 X 线平片或 MR 检查时偶然发现。所有患者均接受 MR 平扫,其中 2 例接受增强扫描。

1.2 仪器与方法 采用 GE Signa HDxt 3.0T 或 Siemens Avanto 1.5T MR 扫描仪,表面柔软线圈。常规行冠状位、矢状位及轴位扫描,采集 FSE 序列 T1WI,TR 560 ms,TE 6.7 ms;脂肪抑制 PDWI,TR 3 460 ms,TE 12.6 ms;层厚均为 5 mm,层间距 0.3 mm;轴位 FOV 38 cm×38 cm,矩阵 256×384,矢状位、冠状位 FOV 32 cm×32 cm~38 cm×38 cm,矩

阵 320×256。增强扫描采用双筒高压注射器经静脉团注对比剂 Gd-DTPA,流率 2.5 ml/s,剂量 0.1 mmol/kg 体重,注入对比剂后即采集 FSE T1WI,参数同平扫。

1.3 图像分析 由 2 名从事骨关节影像学诊断的高年资放射科医师共同阅片,意见不一时经协商解决。观察病灶部位、形态、大小、边界、基质钙化及其程度,病灶信号及强化特点,病灶周围骨髓有否水肿和骨皮质异常改变(膨胀、增厚、骨皮质内层扇贝样凹陷及虫蚀样缺损)等。软骨肉瘤早期骨髓腔浸润影像学诊断标准:肿瘤边缘模糊、周围骨髓出现异常信号。骨皮质浸润影像学诊断标准:骨皮质内层扇贝样凹陷(Ⅰ度,肿瘤累及骨皮质深度 $<1/3$;Ⅱ度,肿瘤累及骨皮质深度 $1/3\sim 2/3$;Ⅲ度,肿瘤累及骨皮质深度 $>2/3$)或骨皮质内层虫蚀样缺损。

1.4 病理分析 由 1 名从事软组织及骨肿瘤诊断的高年资病理医师对所有术后大体标本和石蜡病理切片进行分析,尤其是影像学提示肿瘤有侵袭性征象的部位,记录肿块形态、大小、软骨细胞的异型性、是否有骨髓腔浸润及骨皮质内层浸润等。组织病理学肿瘤骨髓腔浸润:肿瘤性软骨侵入到周围骨小梁间隙、破坏骨质、取代正常骨髓组织,并包裹残存的骨小梁。骨皮质内层浸润:骨皮质内层肿瘤的扇贝样侵蚀、中央管内肿瘤充填。

1.5 统计学分析 采用 SPSS 22.0 统计分析软件。以手术病理结果为金标准,评价 MRI 对软骨肉瘤骨髓和骨皮质浸润的诊断效能;采用 $Kappa$ 检验评价 MRI 与病理诊断的一致性: $Kappa>0.75$ 一致性好,0.40~0.75 一致性较好, $Kappa<0.40$ 一致性较差。 $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

11 例软骨肉瘤中,病理结果显示 10 例骨皮质内层不同程度、不同形式的扇贝样、虫蚀样破坏(图 1),5 例骨髓腔内可见浸润(图 2)。

11 例软骨肉瘤位于长骨不同部位,8 例位于骨干,3 例跨骨端和骨干生长;肿瘤呈长椭圆形 9 例,类圆形

2 例,其中 3 例呈分叶状;肿瘤最长径 3.80 ~ 9.75 cm,平均 (6.45 ± 0.32) cm。T1WI 肿瘤呈稍低或等信号,脂肪抑制 PDWI 呈显著不均匀高信号(图 1、2),6 例病灶内见分隔样结构,2 例增强后肿瘤内呈多发弧形、环形分隔强化及周边花环样强化;2 例肿瘤周围可见骨髓水肿,其中 1 例伴病理性骨折;患骨周围软组织均未见水肿。

11 例软骨肉瘤中,MRI 显示 9 例骨皮质早期浸润,其中 6 例骨皮质内层见不同程度扇贝样凹陷(I 度 3 例、II 度 2 例、III 度 1 例),3 例骨皮质内层不同形式虫蚀样破坏;4 例见骨髓腔内浸润,表现为肿瘤边缘模糊、周围骨髓出现异常信号。与病理结果对照,MRI 对骨皮质早期浸润诊断假阴性 1 例,肿瘤髓腔内浸润假阴性 2 例、假阳性 1 例。MRI 诊断骨皮质早期浸润的敏感度为 90.00% (9/10),特异度 100% (1/1),阳性预测值 100% (9/9),阴性预测值 50.00% (1/2),诊断准确率 90.91% (10/11);MRI 诊断骨髓腔浸润的敏感度为 60.00% (3/5),特异度 83.33% (5/6),阳性预测值 75.00% (3/4),阴性预测值 71.43% (5/7),诊断准确率 72.73% (8/11)。MRI 诊断软骨肉瘤骨髓腔浸润和骨皮质浸润与病理结果的一致性较好($Kappa=0.441, 0.621, P$ 均 <0.05)。

3 讨论

根据临床及影像学特点鉴别诊断手、足短管状骨及中轴骨的软骨肉瘤与内生软骨瘤相对容易,高级别软骨肉瘤组织病理学特征明显,与内生软骨瘤也易鉴别^[2-3],但组织病理学及影像学鉴别诊断四肢长管状骨中心型低级别软骨肉瘤与内生软骨瘤均较困难^[5-7]。低级别软骨肉瘤与内生软骨瘤的细胞学和组织学往往相似,鉴别诊断在很大程度上依赖于肿瘤骨髓腔或骨皮质浸润等侵袭性表现^[8-9],而术前穿刺活检组织病理难以获得肿瘤浸润性生长的证据,且由于肿瘤的异质性,穿刺活检易产生取样误差。另一方面,中心型低

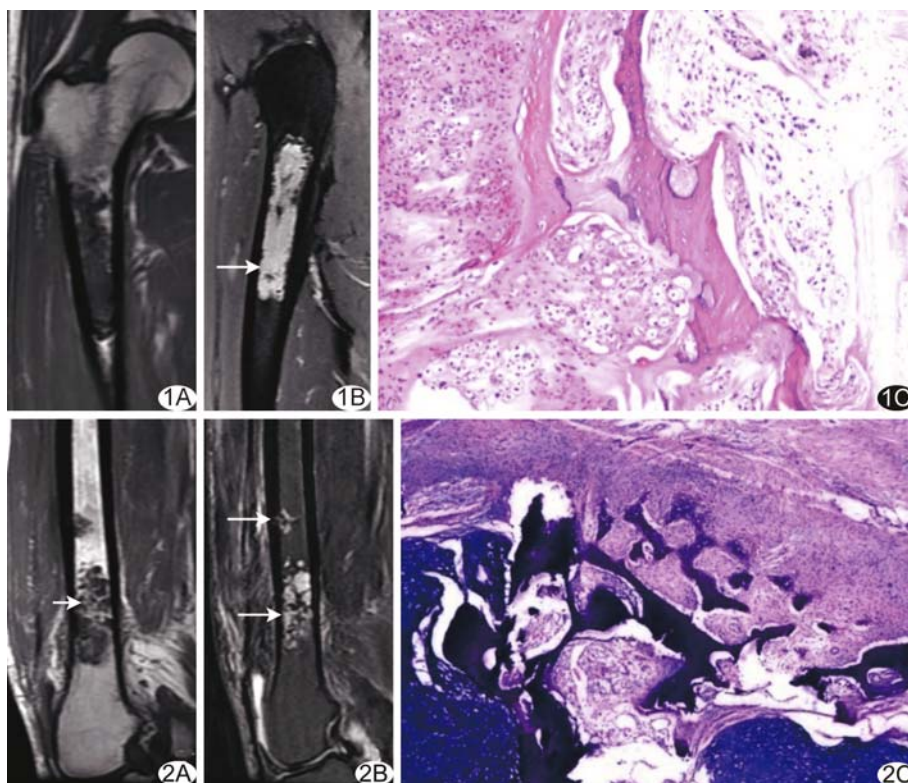


图 1 患者男,46 岁,右侧股骨上段中心型 I 级软骨肉瘤 A. 冠状位 T1WI 示股骨上段长椭圆形骨质破坏,肿瘤呈不均匀等信号;B. 矢状位脂肪抑制 PDWI 示肿瘤呈不均匀高信号,其内见斑点状低信号,边缘清楚,肿瘤下部内侧骨皮质内层轻度扇贝样凹陷(箭);C. 病理图示骨皮质破坏(HE, $\times 100$) 图 2 患者男,70 岁,右侧股骨下段中心型 I 级软骨肉瘤 A、B. 冠状位 T1WI (A)和脂肪抑制 PDWI(B)示股骨下段 2 处长椭圆形、卵圆形骨质破坏,病灶呈不均匀等 T1 信号,PDWI 呈不均匀高信号,肿瘤内可见包绕黄骨髓信号(短箭),边缘不清,骨皮质内层虫蚀样破坏(长箭);C. 病理图示骨髓腔浸润(HE, $\times 40$)

别软骨肉瘤须行节段性切除术,而内生软骨瘤是良性病变,可随访或行肿瘤刮除术,故术前准确鉴别 2 种肿瘤对确定治疗方案及改善预后十分重要。

影像学检查对术前鉴别长管状骨中心型低度恶性软骨肉瘤与内生性软骨瘤具有重要价值。既往有关二者常规和动态增强 MRI 鉴别诊断的研究^[10-12]较多,从肿瘤部位、形态、大小、边界、基质钙化及程度,病灶信号及强化特点、病灶周围骨髓是否水肿,骨皮质内层扇贝样凹陷及骨皮质破坏、骨膜反应、软组织肿块等方面对二者进行鉴别,但其价值存在争议,主要原因在于目前缺乏明确诊断低度恶性软骨肉瘤的组织病理学标准^[5,7-8],且各研究纳入标准不同(包括肿瘤的分级、发病部位等)。Douis 等^[5]强调应将低度恶性软骨肉瘤的组织病理学浸润性生长模式作为标准评估 MRI 的诊断效能,认为可减少临床、病理与影像学联合诊断所致的偏倚(由于不同研究中心的软骨肉瘤诊断标准不同,可导致潜在的诊断过度或不足),提高诊断准确率。

本研究与手术病理相对照,探讨 MRI 诊断长骨中心型低级别软骨肉瘤术前早期侵袭性的价值。

影像学上低级别软骨肉瘤的侵袭性可表现为病灶边缘模糊、周围骨髓腔内异常信号、骨皮质内层不同程度扇贝样凹陷、骨皮质破坏、骨膜反应和软组织肿块等;其中病灶边缘模糊、骨髓腔内异常信号和骨皮质内层不同程度扇贝样凹陷、虫蚀状破坏等早期侵袭性表现对于诊断低级别软骨肉瘤及其与内生软骨瘤鉴别更有意义,因为低级别软骨肉瘤所致骨皮质破坏、骨膜反应和软组织肿块较少见并出现较晚,且此时恶性表现特征已较明显,与内生软骨瘤鉴别相对容易。MRI 软组织分辨率高,可敏感、准确地显示软骨肉瘤早期骨皮质和髓腔内浸润。Vanel 等^[13]认为中心型 I 级软骨肉瘤镜下最具特征的表现是侵犯骨皮质。本组软骨肉瘤早期不同形式、不同程度皮质内层浸润发生率较高(9/11,81.82%),以骨皮质内层扇贝样凹陷最为多见,与既往研究^[4-5]结果相符。低度恶性软骨肉瘤骨髓腔内侵袭性生长可致肿瘤边缘模糊、周围骨髓出现异常信号。本研究显示 MRI 诊断软骨肉瘤骨髓腔浸润和骨皮质浸润与病理结果的一致性较好($Kappa=0.441, 0.621$),诊断骨皮质浸润具有较高准确率(90.91%),但对骨髓腔浸润的诊断敏感度(60.00%)和准确率(72.73%)均较低。MRI 对肿瘤骨皮质和髓腔内浸润均存在一定程度误判,尤其是肿瘤骨髓腔浸润(3/5,60.00%),可能与肿瘤周围骨髓水肿致边缘模糊以及肿瘤浸润范围小、难以显示有关。Crim 等^[7]发现 MRI 诊断低度软骨肉瘤假阳性率达 14.1%,也可产生假阴性。

有学者^[14-15]尝试采用 MRI 新技术鉴别诊断低度恶性软骨肉瘤与内生性软骨瘤。Douis 等^[14]研究发现 DWI 不能准确鉴别内生性软骨瘤与软骨肉瘤,亦不能准确鉴别低度恶性软骨肉瘤与高度恶性软骨肉瘤;Lisson 等^[15]认为 MRI 纹理参数鉴别低级别软骨肉瘤具有一定价值,增强 T1WI 的峰度诊断低级别软骨肉瘤的准确率达 86%。

本研究的局限性:①本病发病率较低,且能获得节段性切除的手术标本更少,使得本研究样本量少,有待进一步积累病例,验证结论的可靠性;②由于接受 MR 增强扫描的例数少,以及增强 MRI 对诊断软骨肉瘤早期侵袭性的作用不确定^[7],本研究仅分析了常规平扫 MRI 征象;③为回顾性分析,难以确保影像学图像与病理切片的精确对应。

总之,常规 MRI 诊断长骨中心性低级别软骨肉瘤早期侵袭性的准确率较高,可为术前鉴别诊断提供有价值的影像学信息。

[参考文献]

- [1] Casali PG, Bielack S, Abecassis N, et al. Bone sarcomas: ESMO-PaedCan-EURACAN Clinical Practice Guidelines for diagnosis, treatment and follow-up. *Ann Oncol*, 2018, 29 (Supplement 4):iv79-iv95.
- [2] Flemming DJ, Murphey MD. Enchondroma and chondrosarcoma. *Semin Musculoskelet Radiol*, 2000, 4(1):59-71.
- [3] Murphey MD, Walker EA, Wilson AJ, et al. From the archives of the AFIP: Imaging of primary chondrosarcoma: Radiologic-pathologic correlation. *Radiographics*, 2003, 23(5):1245-1278.
- [4] Murphey MD, Flemming DJ, Boyea SR, et al. Enchondroma versus chondrosarcoma in the appendicular skeleton: Differentiating features. *Radiographics*, 1998, 18(5):1213-1237.
- [5] Douis H, Parry M, Vaiyapuri S, et al. What are the differentiating clinical and MRI-features of enchondromas from low-grade chondrosarcomas? *Eur Radiol*, 2018, 28(1):398-409.
- [6] Ferrer-Santacreu EM, Ortiz-Cruz EJ, González-López JM, et al. Enchondroma versus low-grade chondrosarcoma in appendicular skeleton: Clinical and radiological criteria. *J Oncol*, 2012, 2012:437958.
- [7] Crim J, Schmidt R, Layfield L, et al. Can imaging criteria distinguish enchondroma from grade 1 chondrosarcoma? *Eur J Radiol*, 2015, 84(11):2222-2230.
- [8] Eefting D, Schrage YM, Geirnaerdt MJ, et al. Assessment of interobserver variability and histologic parameters to improve reliability in classification and grading of central cartilaginous tumors. *Am J Surg Pathol*, 2009, 33(1):50-57.
- [9] 蒋智铭. 骨关节肿瘤和瘤样病变的病理诊断. 上海:上海科学教育出版社, 2008:34-52.
- [10] 周建功, 袁小东, 马小龙, 等. 长骨中心型 I 级软骨肉瘤与内生软骨瘤的影像鉴别诊断. *中华放射学杂志*, 2014, 48(11):926-929.
- [11] Choi BB, Jee WH, Sunwoo HJ, et al. MR differentiation of low-grade chondrosarcoma from enchondroma. *Clin Imaging*, 2013, 37(3):542-547.
- [12] Coninck TD, Jans L, Sys G, et al. Dynamic contrast-enhanced MR imaging for differentiation between enchondroma and chondrosarcoma. *Eur Radiol*, 2013, 23(11):3140-3152.
- [13] Vanel D, Kreshak J, Larousserie F, et al. Enchondroma vs. chondrosarcoma: A simple, easy-to-use, new magnetic resonance sign. *Eur J Radiol*, 2013, 82(12):2154-2160.
- [14] Douis H, Jeys L, Grimer R, et al. Is there a role for diffusion-weighted MRI (DWI) in the diagnosis of central cartilage tumors? *Skelet Radiol*, 2015, 44(7):963-969.
- [15] Lisson CS, Lisson CG, Flosdorf K, et al. Diagnostic value of MRI-based 3D texture analysis for tissue characterisation and discrimination of low-grade chondrosarcoma from enchondroma: A pilot study. *Eur Radiol*, 2018, 28(2):468-477.