



Title	原発性骨腫瘍における血管造影の検討-特に良悪性判別能の評価について-
Author(s)	菅原, 盛家
Citation	日本医学放射線学会雑誌. 1983, 43(10), p. 1165-1182
Version Type	VoR
URL	https://hdl.handle.net/11094/16513
rights	
Note	

The University of Osaka Institutional Knowledge Archive : OUKA

<https://ir.library.osaka-u.ac.jp/>

The University of Osaka

原発性骨腫瘍における血管造影の検討

—特に良悪性判別能の評価について—

東北大学医学部放射線医学教室（主任：星野文彦教授）

菅 原 盛 家

（昭和57年12月24日受付）

（昭和58年1月25日最終原稿受付）

Diagnostic Value of Angiography in Primary Bone Tumor

—Especially the Evaluation of its Discriminative Ability
between Malignant and Benign Bone Tumor—

Seiya Sugawara

Department of Radiology, Tohoku University, School of Medicine, Sendai, Japan

Research Code No.: 505.4

Key Words: Angiography, Bone tumor, Discriminative score

There have been much controversy about the usefulness of angiography in differentiating between malignant and benign bone lesion. In this paper, 73 arteriograms of proved 70 malignant and benign bone tumors experienced for 10 years were evaluated to identify the criteria for malignancy.

Abnormal 14 findings were examined in each arteriograms and each incidence rate of them was calculated. Four discriminative findings of these ones were selected which had χ^2 value of incidence rate higher than 20 between malignant and benign bone lesion, and had specificity for malignant tumor higher than 70% at the same time.

They were (a) soft tissue extension with rough surface, (b) encasement, (c) irregular blood pool, and (d) rapid tapering or abrupt termination. If these findings were seen in an angiogram, one point was offered to each findings, and their summation was calculated (discriminative score).

All of the 26 cases were malignant which showed 3 or 4 of this score. Of the 24 cases which showed score 0, 23 cases (96%) were benign. When a patient gained 1 or 2 of this score, the probability of malignancy was 45% or 75% respectively.

Many of the cases with osteosarcoma (17/22), chondrosarcoma (4/9) and one case with fibrosarcoma (1/2), hemangiopericytoma (1/1) showed hypervascularity and had high discriminative score. But it was difficult to differentiate them each other. Some cases with chondrosarcoma (3/9) and all the cases with bone marrow tumor (4/4) were scarce of pathological findings and so their discriminative score was low. Many cases with giant cell tumor (7/10), aneurysmal bone cyst (1/4), and hemangioma (2/3) showed hypervascularity, but their discriminative score was not so high as hypervascular malignant tumor. All the cases with bone cyst (2), fibroma (1), exostosis (2), fibrous cortical defect (3), and 2 cases with fibrous dysplasia (2/4) belonged to hypovascular bone tumor and their discriminative score was 0. Other 2 cases with fibrous dysplasia showed moderate vascularity and they were considered in active state. In a case with hemangioma and one case with chondrosarcoma, angiography was useful for estimating the effect of radiation therapy.

1. はじめに

骨腫瘍の診断とりわけ良悪性の判定は、治療方針の決定、予後判定に非常に重要である。そのためには正確な病歴、理学的所見の把握、単純X線像の正確な分析が必要であり、最終的には組織的検査により決定される¹⁾。しかし場合によっては以上のデータだけでは不十分で血管撮影が必要となることも少なくない²⁾。従来、血管撮影により骨腫瘍の拡がり、周囲組織との関連が明らかとなり、またおよその悪性度についても推定することが可能であると言わされてきた³⁾⁴⁾。しかし骨軟部組織腫瘍は他臓器と異なり組織型が多彩で病理診断に迷うこともあり²⁾⁵⁾、また同一症例でも部位によって組織型が異なることもあります⁶⁾、血管像も多彩な変化を示すため、一般的にはその解析が困難とされている⁷⁾。本研究ではこの点に着目し、いかなる所見が骨腫瘍診断に特に有用であるかを決定

し、その診断に客観性を持たせるため、70名の骨疾患の血管像を詳細に分析し、 χ^2 （カイ二乗）検定による計量的診断法を取り入れて解析した⁸⁾⁹⁾。その結果、悪性骨疾患の診断に特に有用と考えられる4所見を認めたので報告し、合わせて各疾患における特徴的血管像についても詳述する。

2. 研究方法

2. 1 対象

研究対象は昭和47年3月から57年8月までに血管造影が行われ、その後の組織学的診断および臨床経過により原発性骨腫瘍または腫瘍類似骨疾患と判明した70名である（Table 1, 2）。

血管造影はセルジンガー法により行われ、連続撮影にて秒間1～2枚、合計10～12秒間行われた。症例によっては更に撮影時間を延長し、通常は正側2方向から撮影した。撮影装置はTriplex An-

Table 1 Case material with primary malignant bone tumor

	Case No.	Age (Mean)	Sex	
			Male	Female
1) Osteosarcoma	21 (22)	5-79y (27.3)	15	6
2) Chondrosarcoma	8 (9)	5-73y (42.6)	4	4
3) Fibrosarcoma	2	48-55y (51.5)	1	1
4) Myeloma	2	18-48y (33.0)	2	
5) Ewing's sarcoma	1	12y		1
6) Malignant lymphoma	1	36y		1
7) Malignant giant cell tumor	2	20-65y (42.5)	1	1
8) Hemangiopericytoma	1	33y	1	
9) Parosteal sarcoma	1	15y	1	
Total	39 cases (41 studies)			

Table 2 Case material with primary benign bone tumor

	Case No.	Age (Mean)	Sex	
			Male	Female
1) Giant cell tumor	9 (10)	19-35y (26.8)	7	2
2) Aneurysmal bone cyst	4	8-53y (24.8)	4	
3) Hemangioma	3	18-37y (25.3)		3
4) Fibrous dysplasia	4	4-42y (18.8)	4	
5) Fibrous cortical defect	3	5-15y (10.0)	2	1
6) Bone cyst	2	6-12y (9.0)	1	1
7) Fibroma	1	20y		1
8) Exostosis	2	33-54y (43.5)	1	1
9) Osteoid osteoma	3	18-49y (31.3)	2	1
Total	31 cases (32 studies)			

giomatic 1023およびAOTであった。多くの例では2~3倍の拡大撮影¹⁰⁾を併用した。カテーテル先端はできるだけ腫瘍部位に近づけ、造影剤注入はインジェクターあるいは手動にて行った。骨硬化像が存在し、血管像の読影に支障のある症例に対してはサブトラクション法を試みた。

2.2 観察項目

血管像の読影にあたっては以下の各所見^{11)~13)}

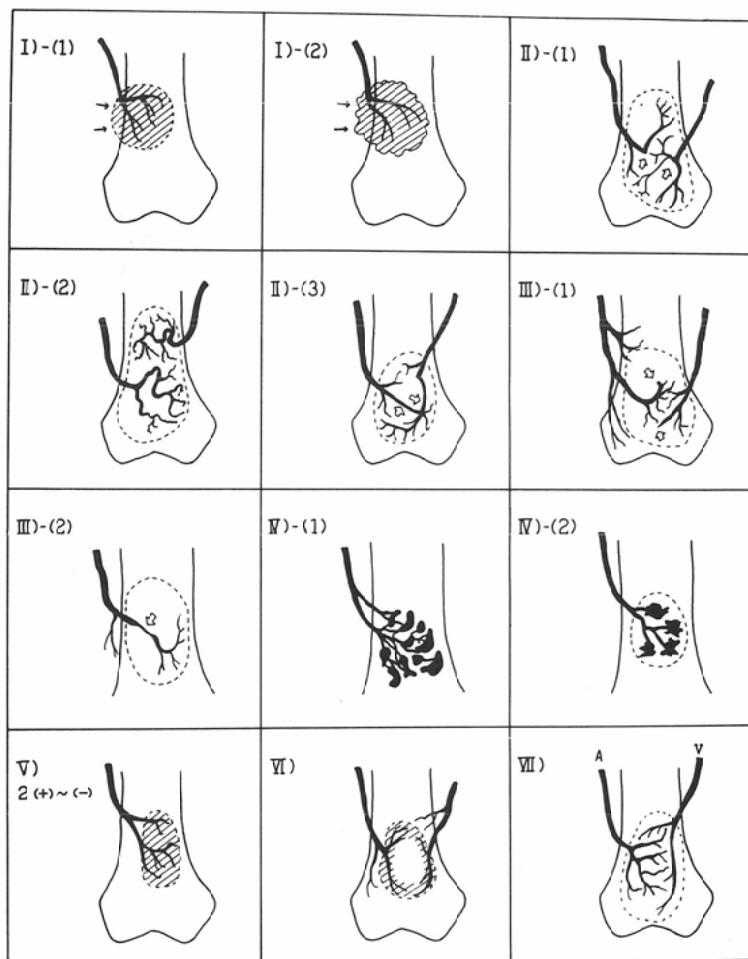


Fig. 1 Schema of angiographic findings shown in bone tumor.

- I) Soft tissue extension : (1) smooth surface. (2) rough surface.
- II) Abnormal vascular course : (1) abrupt angulation or rapid spreading. (2) spiral or tortuous vessel. (3) vascular stretching or curvilinear displacement.
- III) Vascular stenotic or occlusive lesion : (1) rapid tapering or abrupt termination. (2) encasement.
- IV) Vascular dilatation : (1) worm like or saccular dilatation. (2) irregular blood pool.
- V) Tumor stain : (1) hyper stain (2+). (2) moderate stain (+). (3) slight stain (±). (4) no stain (-).
- VI) Avascular area.
- VII) Early venous return.

の有無について検討を行った(Fig. 1)。

I) 骨外伸展 soft tissue extension : これは腫瘍血管が骨の辺縁より周囲軟部組織中に突出する所見であり、その表面が、(1) 平滑なもの smooth surface および、(2) 不整なもの rough surface に区分した。I)-(1)をFig. 2に、I)-(2)をFig. 3に示す。

II) 血管走行異常 abnormal vascular course :

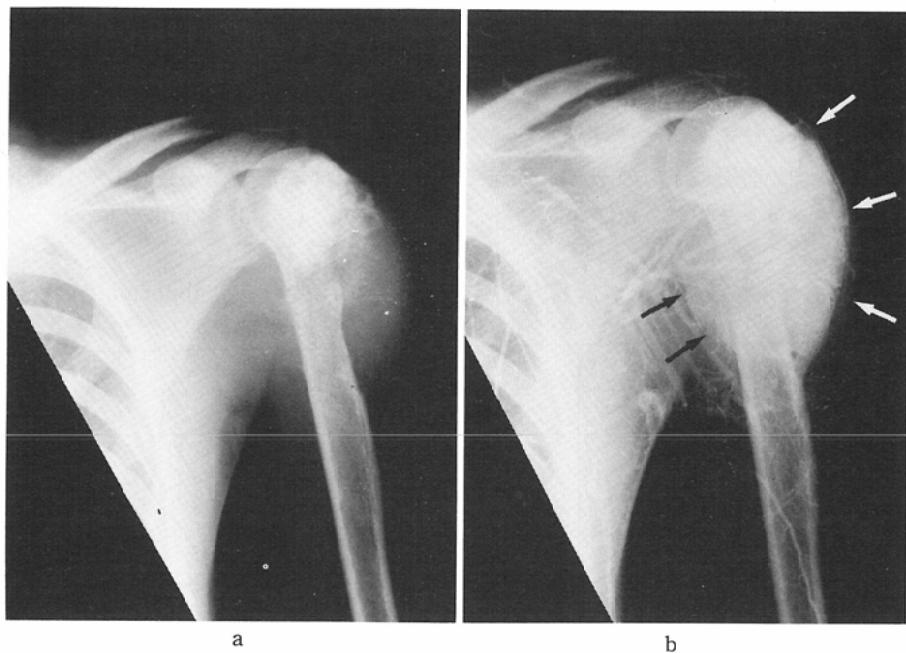


Fig. 2 (a) A case of osteosarcoma in left proximal humerus, 19 years old male.
 (b) Arteriographic image showed hyperstain bone tumor. Soft tissue extension with smooth surface was seen.

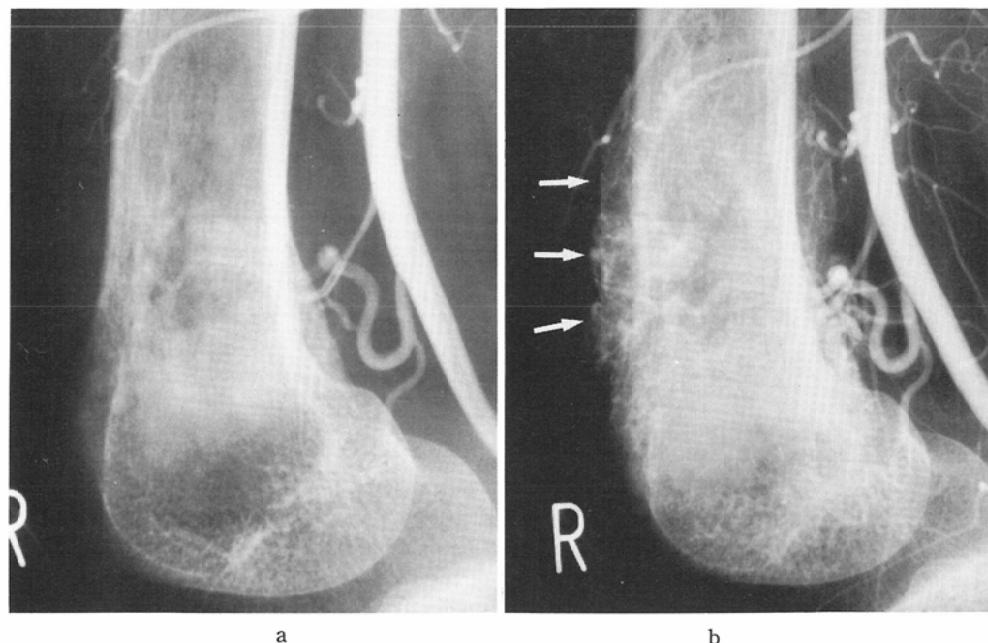


Fig. 3 (a) A case of osteosarcoma in right distal femur, 30 years old female.
 Early arterial phase.
 (b) Late arterial phase. Soft tissue extension with rough surface was seen.

- (1) 急激にその方向が変わる。または急に血管が散開する abrupt angulation or rapid spreading.
- (2) 血管がらせん状あるいは種々の方向に蛇行する spiral or tortuous vessel (Fig. 4).
- (3) 血管が伸展し直線状あるいは弧状になる vascular stret-

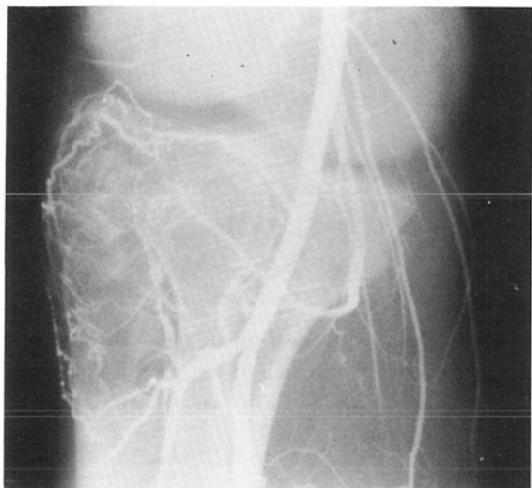


Fig. 4 Arteriographic image of the case with giant cell tumor in tibia, 19 years old male. Spiral and tortuous vessel was remarkable.

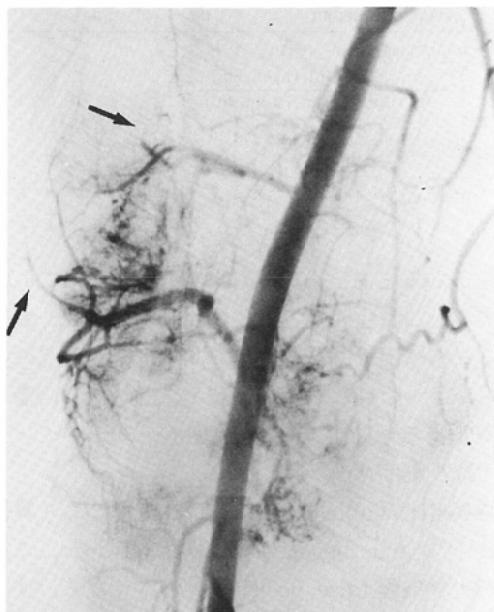


Fig. 5 A case of osteosarcoma in right distal femur (the same case in Fig. 3). Rapid tapering was shown. Subtraction X-P.

ching or curvilinear displacement.

III) 血管径の急な狭小化あるいは途絶 vascular stenotic or occlusive lesion : (1) rapid tapering or abrupt termination (Fig. 5), (2) 部分的狭窄 encasement (Fig. 6).

IV) 血管の部分的拡張 vascular dilatation :

(1) イモ虫状あるいは囊状拡張 worm like or saccular dilatation. (2) 辺縁不整な血管腔 irregular blood pool (Fig. 7).

V) 肿瘍濃染像 tumor stain : これは毛細管相における腫瘍の染まりを示すもので、一見して周囲の健常骨より強い濃染像を示すものを、(1) hyperstain (2+) (Fig. 2) とし、中等度のものを、(2) moderate stain (+), 注意すればわずかに染まりが見られるものを、(3) slight stain (±), 全く染まりが見られないものを、(4) no stain (-) に分類した。骨硬化像がある場合にはサブトラクションを行い、周囲軟部組織毛細管相と比較した。

VI) 無血管野 avascular area : 肿瘍濃染部内の部分的非染部であり、腫瘍内の壊死や出血を示唆する。腫瘍濃染が moderate stain 以上のものに

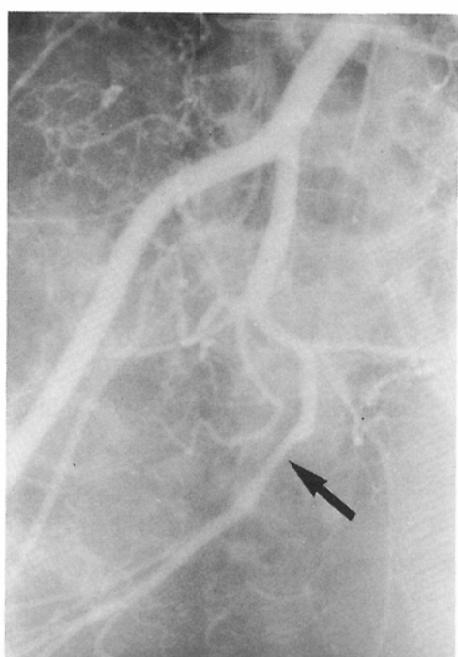


Fig. 6 A case of chondrosarcoma in right ilium, 33 years old female. Arterial encasement was seen.

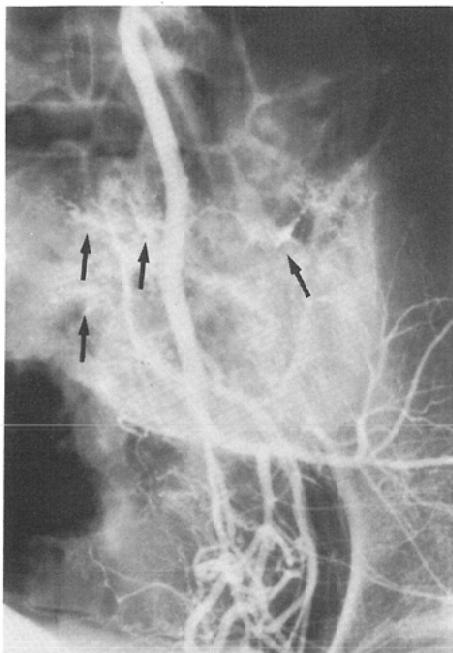


Fig. 7 A case of osteosarcoma in left iliosacral region, 23 years old female. Irregular blood pools should be noticed.

についてのみ検討した。

VII) 早期静脈描出 early venous return: これは撮影がまだ静脈相に移行しない段階で静脈が描出される所見である (Fig. 8).

2. 3 解析の方法

本研究では良悪性判別の discriminator となる所見を見出すべく、症例を良性疾患群、悪性疾患群に分け、両群における各所見の発現頻度、 χ^2 値⁸⁾⁹⁾、および特異度 specificity¹⁴⁾¹⁵⁾を算出した。次いで χ^2 値および特異度が一定の水準に達した所見を選び出し、各段階毎にそれらを組み合わせて診断能を求め、どの組み合わせが最も有用であるかを比較検討した。

χ^2 値は Table 3 に示された数式により算出される値であり⁸⁾⁹⁾、良悪性両群における各所見発現率の統計的差異を示す値である。この χ^2 値が大きい程、その所見の各々両群における発現率の差が大きい。言い換えれば高い χ^2 値をもたらす所見程、発現率に差があるため 2 つの群（良悪性）を判別する能力が大きいと言える。危険率 $p < 0.05$



Fig. 8 A case of aneurysmal bone cyst at the major trochanteric area of left proximal femur, 21 years old male. Early venous return was noticed. Subtraction X-P.

Table 3 General decision matrix

	Test result	
	positive	negative
malignant bone tumor	n_1	n_2
benign bone tumor	n_3	n_4
total cases = $n_1 + n_2 + n_3 + n_4$		
$\chi^2 = \frac{(n_1n_4 - n_2n_3)^2}{(n_1+n_2)(n_3+n_4)(n_1+n_3)(n_2+n_4)}$		
sensitivity = $\frac{n_1}{n_1+n_2}$		
specificity = $\frac{n_4}{n_3+n_4}$		

で差があると言える χ^2 値は 3.84, $p < 0.01$ で 6.63 であるがこの程度の値で 2 つの群を効率よく判別することは困難である⁸⁾。本研究では、各所見の発現率が 2 つの群において明らかに差があり両者を判別し得る値として $\chi^2 = 20$ をボーダーラインとして取り上げた。

特異度も Table 3 で示された数式により算出され¹⁴⁾¹⁵⁾, true negative ratio とも言われ、この値が大きい程 false positive が小さくなる。すなわち非常に特異度の高い所見が得られれば、ある疾患（ここでは悪性腫瘍）と断定できる (pathognomonic)。この特異度と χ^2 値を組み合わせる

ことにより良悪性両群において、発現率に統計的に信頼し得る差異が存在し、しかも悪性腫瘍にpathognomonicな所見を選び出すことが可能となる。

しかし特異度の高い所見が必ずしも感度 sensitivityが高いわけではなく、むしろ低いことが多い¹⁴⁾¹⁶⁾。そうなると1つの所見の有無だけで診断を下す場合 false negative(見落とし)が多くなる。従って骨腫瘍の診断にあたってはpathognomonicと考えられるいくつかの所見を組み合わせて考える必要がある¹²⁾。著者はそれらの組み合わせにおいて個々の所見が見られた場合を1

点とし、症例毎に合計点を算出し、それを判別指標と称し良悪性の判定に使用してみた。

3. 結 果

良悪性疾患群70例における73回の血管撮影がretrospectiveに検討され、Fig. 1に挙げた異常所見の有無が症例毎に調べられた(Table 4, 5)。soft tissue extensionの項目に関してはchondrosarcoma, parosteal sarcoma, giant cell tumor (periosteal)の各1例およびhemangiomaの2例は判定不能であった。またosteosarcomaの1例は撮影のタイミングが悪く、avascular area, early venous returnの判定が不能であつ

Table 4 Incidence of angiographic findings in the cases with various malignant bone tumors.
(I)–(VII): See Fig. 1

No. of the cases	Angiographic findings	(I)		(II)			(III)		(IV)		(V)			(VI)	(VII)
		(1)	(2)	(1)	(2)	(3)	(1)	(2)	(1)	(2)	(1)	(2)	(3)		
1) Osteosarcoma	22	2/22	19/22	22/22	18/22	22/22	22/22	19/22	1/22	15/22	17/22	5/22	0/22	10/21	19/21
2) Chondrosarcoma	9	0/8	7/8	8/9	7/9	9/9	7/9	5/9	0/9	6/9	4/9	3/9	2/9	6/7	4/9
3) Fibrosarcoma	2	0/2	2/2	2/2	1/2	2/2	2/2	1/2	0/2	1/2	1/2	1/2	0/2	1/2	0/2
4) Myeloma	2	0/2	1/2	1/2	1/2	2/2	1/2	1/2	0/2	0/2	0/2	2/2	0/2	1/2	1/2
5) Ewing's sarcoma	1	0/1	0/1	1/1	1/1	1/1	1/1	0/1	0/1	1/1	0/1	0/1	1/1	1/1	0/1
6) Malig. lymphoma	1	0/1	1/1	1/1	1/1	1/1	1/1	0/1	0/1	0/1	0/1	1/1	0/1	1/1	1/1
7) Malig. GCT	2	1/2	1/2	2/2	2/2	2/2	2/2	0/2	0/2	0/2	1/2	1/2	0/2	0/2	2/2
8) Hemangiopericytoma	1	0/1	1/1	1/1	1/1	1/1	1/1	0/1	1/1	1/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1
9) Parosteal sarcoma	1	1/1		0/1	1/1	1/1	1/1	0/1	0/1	0/1	0/1	1/1	1/1	1/1	0/1

Table 5 Incidence of angiographic findings in the cases with various benign bone tumors.
(I)–(VII): See Fig. 1

No. of the cases	Angiographic findings	(I)		(II)			(III)		(IV)		(V)			(VI)	(VII)
		(1)	(2)	(1)	(2)	(3)	(1)	(2)	(1)	(2)	(1)	(2)	(3)		
1) GCT	10	3/9	1/9	6/10	6/10	8/10	7/10	1/10	0/10	1/10	7/10	0/10	1/10	5/7	8/10
2) Aneurysmal bone cyst	4	1/4	0/4	4/4	3/4	3/4	1/4	0/4	1/4	0/4	2/4	1/4	0/4	1/3	2/4
3) Hemangioma	3	0/1	0/1	0/3	2/3	0/3	0/3	0/3	2/3	0/3	2/3	0/3	0/3	0/2	0/3
4) Fibrous dysplasia	4	1/4	0/4	0/4	0/4	1/4	0/4	0/4	1/4	0/4	0/4	2/4	0/4	0/2	0/4
5) Fibrous cortical defect	3	0/3	0/3	1/3	0/3	2/3	0/3	0/3	0/3	0/3	0/3	0/3	0/3	1/3	0/3
6) Bone cyst	2	0/2	0/2	1/2	0/2	2/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2	1/2	1/2	1/2
7) Fibroma	1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1	0/1
8) Exostosis	2	0/2	0/2	0/2	1/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2	0/2
9) Osteoid osteoma	3	0/3	0/3	0/3	1/3	0/3	1/3	0/3	0/3	0/3	1/3	1/3	1/3	0/3	0/3

Table 6 Incidence rates of various angiographic findings in the cases with benign and malignant bone tumors. Chi-square value between the both entities, and specificity for malignant bone tumor were obtained. I)–VII): See Fig. 1

	Angiographic findings	Malignant bone tumor	Benign bone tumor	χ^2	Specificity
I)	(1)	3/39 (7.7%)	5/29 (17.2%)	1.5	82.8
	(2)	32/39 (82.1%)	1/29 (3.4%)	41.1	96.6
II)	(1)	39/41 (95.1%)	12/32 (37.5%)	35.3	62.5
	(2)	32/41 (78.0%)	13/32 (40.6%)	10.6	59.4
	(3)	41/41 (100%)	16/32 (50.0%)	26.3	50.0
III)	(1)	38/41 (92.7%)	9/32 (28.1%)	32.7	71.9
	(2)	28/41 (68.3%)	1/32 (3.1%)	31.9	96.9
IV)	(1)	1/41 (2.4%)	4/32 (12.5%)	2.9	87.5
	(2)	24/41 (58.5%)	1/32 (3.1%)	24.5	96.9
V)	(1)	24/41 (58.5%)	11/32 (34.4%)	4.2	65.6
	(2)	13/41 (31.7%)	4/32 (12.5%)	3.7	87.5
	(3)	4/41 (9.8%)	3/32 (9.4%)	0	90.6
VII)		19/36 (52.8%)	6/14 (42.9%)	0.4	57.1
VII)		27/40 (67.5%)	11/32 (34.4%)	7.8	65.6

Table 7 Selected angiographic findings which had both χ^2 values higher than 20 and specificity higher than 50%. When they were seen in an angiogram, one point was offered to each finding and their summation were calculated in each case (Discriminative score)

- (a) Soft tissue extension with rough surface (I)-(2)
- (b) Encasement (III)-(2)
- (c) Irregular blood pool (IV)-(2)
- (d) Rapid tapering or abrupt termination (III)-(1)
- (e) Abrupt angulation or rapid spreading (II)-(1)
- (f) Vascular stretching or curvilinear displacement (II)-(3)

た。

Table 6 に良悪性両群における各所見の発現頻度, χ^2 値および特異度を示す。 $\chi^2 > 20$ となる所見は 6 所見であり、それらを良悪性判別の discriminator として使用する (Table 7)。6 所見を特異度の高い順に 90% 以上の場合、70% 以上の場合、60% 以上の場合、50% 以上の場合の 4 段階に分けて選択し組み合わせ、各段階毎に個々の症例の判別指數を求め、その分布状態を比較する (Table 8)。

A 案一特異度が 90% 以上の所見を discriminator として使用する場合。これに合致する所見は、I)–(2) soft tissue extension with rough surface, III)–(2) encasement, IV)–(2)

Table 8 Diagnostic ability of discriminative score in the four following situations: (A) Three angiographic findings (specificity >90%)-(a), (b), (c)-were used as discriminator. (B) Four angiographic findings (specificity >70%)-(a), (b), (c), (d)-were used. (C) Five angiographic findings (specificity >60%)-(a), (b), (c), (d), (e)-were used. (D) Six angiographic findings (specificity >50%)-(a), (b), (c), (d), (e), (f)-were used. (a)–(f): See Table 7

A)	discriminative score			
	0	1	2	3
malignant bone tumor	5	9	6	21
benign bone tumor	29	3	0	0
B)	discriminative score			
	0	1	2	3
malignant bone tumor	1	5	9	5
benign bone tumor	23	6	3	0
C)	discriminative score			
	0	1	2	3
malignant bone tumor	0	3	4	8
benign bone tumor	18	6	6	2
D)	discriminative score			
	0	1	2	3
malignant bone tumor	0	0	3	4
benign bone tumor	13	7	4	6

irregular blood pool の 3 所見である。これらの各所見が見られた場合を各々 1 点とし、症例毎の判別指數を算出する。判別指數 2 以上で全例悪性、1 で 12 例中 9 例 (75%) が悪性であった。0 の場合 34 例中 29 例 (85.3%) が良性疾患であった。

B 案一特異度が 70% 以上の所見を使用する場合、これは前項の 3 所見に加えて III) —(1) rapid tapering or abrupt termination の計 4 所見が discriminator として使用される。この場合判別指數 3, 4 では 26 例全例 (100%) 悪性、2 で 12 例中 9 例 (75%)、1 で 11 例中 5 例 (45.5%) が悪性であった。0 では 24 例中 1 例 (4.2%) が悪性であった。

C 案一特異度が 60% 以上の所見の場合、先の 4 所見に加えて II) —(1) abrupt angulation or rapid spreading の計 5 所見が discriminator として使用される。この場合判別指數 4 以上で全例悪性であり、3, 2, 1 の場合悪性腫瘍はそれぞれ 80% (8/10), 40% (4/10), 33% (3/9) を占め、0 では全例良性腫瘍であった。

D 案一特異度が 50% 以上の所見を使用する場合で C 案の 5 所見に加えて II) —(3) vascular stretching or carvilinear displacement が discriminator として使用される。この場合判別指數 5 以上で全例悪性、4, 3, 2 で各々 80% (8/10), 40% (4/10), 43% (3/7) 悪性となり 1 以下で全例良性腫瘍となる。

次に以上の 4 案を比較してみる。A 案では 95% 以上の確率で正しく良悪性を判断し得るのは判別指數が 2, 3 の時のみであり、73 例中 27 例 (37%) がこれに該当していた。B 案で 95% 以上の確率で正診されるのは判別指數が 0, 3, 4 の場合で、これに属するものは 73 例中 50 例 (68%) であった。同様にして C 案では判別指數 0, 4, 5 が該当し 44 例 (60%) がこれに属する。D 案では判別指數 0, 1, 5, 6 が該当し、46 例 (63%) がこれに属する。以上の点より臨床的には試案 B が最も有用な分析法となる。すなわち骨血管造影においては、(a) soft tissue extension with rough surface, (b) encasement, (c) irregular blood pool, (d) rapid tapering or abrupt termination の 4

所見が良悪性的判定に重要である。以後の症例の検討は全て B 案に基いて行い、Table 9, 10 に各疾患別の判別指數を示す。

次に各疾患の特徴的所見について述べる。

1) osteosarcoma は 21 症例で 22 回の血管造影が施行されている。性別、年齢は Table 1 に示す如くである。1 例は multicentric osteosarcoma の例で左大腿骨と右胫骨に 2 回血管造影を受けている。発生部位は大腿骨 9 例、胫骨 6、腓骨 2,

Table 9 Discriminative score of malignant bone tumor

cases	score				
	0	1	2	3	4
1) Osteosarcoma	22	0	1	3	4 14
2) Chondrosarcoma	9	1	2	0	1 5
3) Fibrosarcoma	2	0	0	1	0 1
4) Myeloma	2	0	1	1	0 0
5) Ewing's sarcoma	1	0	0	1	0 0
6) Malig. lymphoma	1	0	0	1	0 0
7) Malig. GCT	2	0	1	1	0 0
8) Hemangiopericytoma	1	0	0	0	0 1
9) Parosteal sarcoma	1	0	0	1	0 0

Table 10 Discriminative score of benign bone tumor

cases	score				
	0	1	2	3	4
1) Giant cell tumor	10	3	4	3	0 0
2) Aneurysmal bone cyst	4	3	1	0	0 0
3) Hemangioma	3	3	0	0	0 0
4) Fibrous dysplasia	4	4	0	0	0 0
5) Fibrous cortical defect	3	3	0	0	0 0
6) Bone cyst	2	2	0	0	0 0
7) Fibroma	1	1	0	0	0 0
8) Exostosis	2	2	0	0	0 0
9) Osteoid osteoma	3	2	1	0	0 0

Table 11 Relationship between bone sclerosis and tumor staining in osteosarcoma

Plain X-P	Tumor staining	hyper stain	moderate stain
	sclerotic	lytic	lytic-sclerotic
	8	7	1
	7	4	3
	7	6	1

上腕骨 2, 股骨, 耻骨, 尺骨各々 1 で膝関節の周辺に発生したもののが 15 名であった。

osteosarcoma は管径不整, 走行異常, 骨外伸展の発現頻度が高く, 多くは hyper stain を示した (Table 4). 判別指数は 3, 4 と高いものが多い (Table 9). 単純 X-P にて sunburst appearance は悪性骨腫瘍にしばしば見られると言われているが¹⁶⁾, 血管造影においてもこの spicula に沿って血管が腫瘍内に入り込む像を示しているものが 22 例中 5 例に見られた (Fig. 9). 骨単純 X-P での硬化像あるいは溶骨性変化¹⁷⁾と vascularity の関係では一定の傾向は見られなかった (Table 11).

2) 次に chondrosarcoma について述べる。chondrosarcoma は 8 名で 9 回の血管造影が行われた。年齢は 5 歳から 73 歳に及び, 40 歳以上が 5 名であった。部位は股骨 2, 肩甲骨 2, 坐骨, 胫骨, 耻骨, 大腿骨各 1 であった。1 例は放射線治療前後に血管造影を受けている。各所見の発現頻度は Table 4 に示す如くである。osteosarcoma と比較すると危険率 5 % で rapid tapering or

abrupt termination, irregular blood pool が osteosarcoma に多く, slight stain は chondrosarcoma に多い。chondrosarcoma 9 例中 4 例は hyperstain を示し, slight stain は 2 例であった。判別指数 3 以上は 9 例中 6 例, 1 以下が 3 例と分極傾向がうかがわれた。Fig. 10 は 32 歳の女性で判別指数は 0 であったが組織診では右肩甲骨原発で悪性度の低い chondrosarcoma とされている。本例は 20 年の経過を持つ腫瘍であった。Fig. 11 は 73 歳の男性で右股骨に発生した chondrosarcoma であり, 放射線治療後明らかに病巣範囲の縮小, 臨床症状の改善が見られ, 判別指数も 4 から 3 へと減じ, 治療効果の判定にも血管造影が有用であった 1 例である。

3) fibrosarcoma は 2 名であり, いずれも大腿骨小転子原発の腫瘍である。判別指数は各々 2, 4 であった。この 2 例は骨破壊に比し周囲病巣が広範囲で偏心性に病巣が拡がっていた。その 1 例を Fig. 12 に示す。

4) bone marrow tumor¹⁸⁾ は 4 例であり, 骨髓

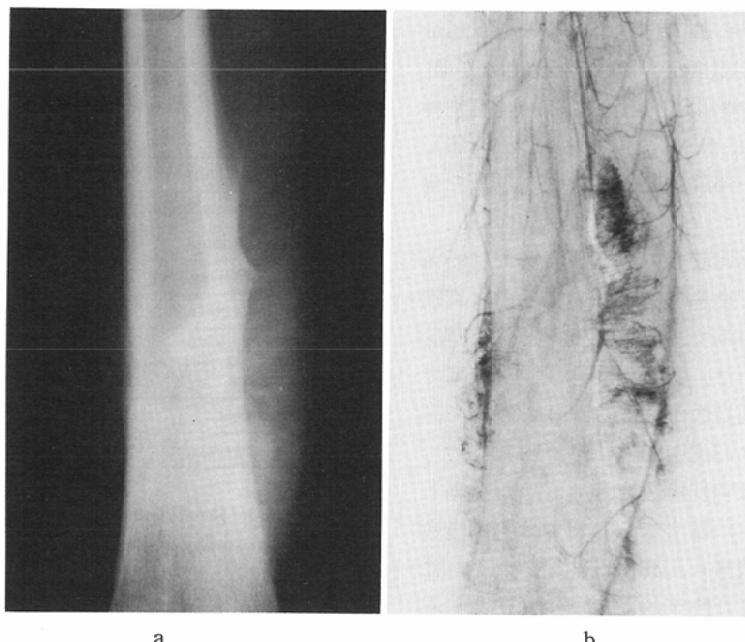


Fig. 9 A case of osteosarcoma, 12 years old male.

(a) Sunburst appearance was clearly shown.

(b) Arteriography showed numerous feeding arteries entered into the tumor region along these spiculae. Discriminative score was 4. Subtraction X-P.

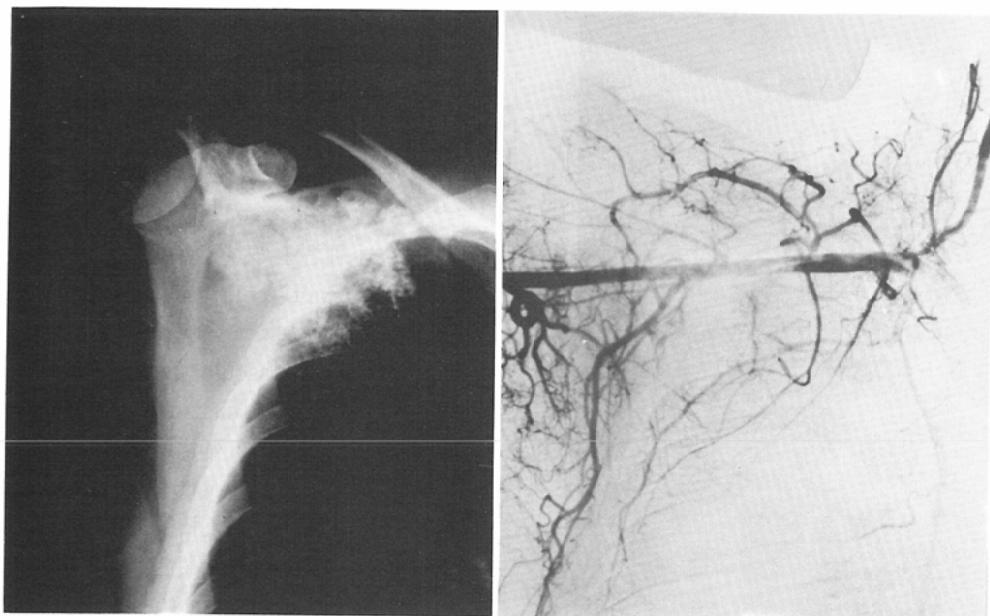


Fig. 10 A case of chondrosarcoma with low grade malignancy, 32 years old female.

(a) Plain X-P showed irregular calcified tumor.

(b) Arteriography (subtraction) showed no pathological findings except vascular displacement. Discriminative score was 0.



Fig. 11 A case of condrosarcoma, 73 years old male.

(a) Arteriography showed hypervasculature bone tumor of right ilium. Note the pathological vessels at the iliac wing. Discriminative score was 4.

(b) After irradiation (6,000 rads), tortuous vessel was diminished and avascular area was enlarged. Discriminative score was decreased to 3.

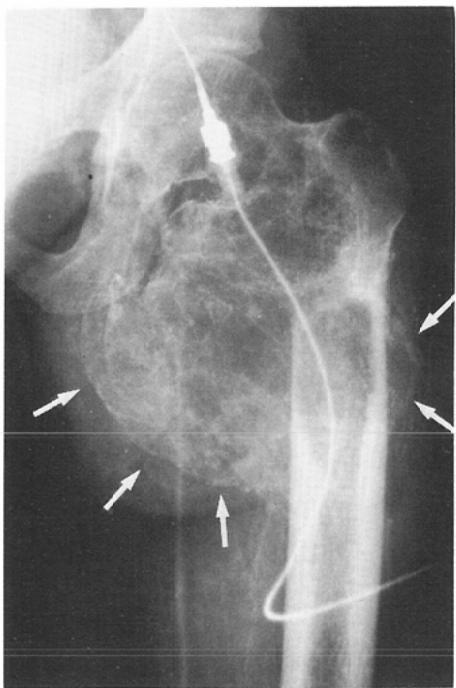


Fig. 12 A case of enormous fibrosarcoma in left proximal femur, 55years old female. Capillary phase revealed large intensive tumor stain which showed eccentric extension to medial site. Discriminative score was 4.

腫2例、ユーアイング肉腫1例、悪性リンパ腫1例であった。血管像はTable 4に示す如くであり、判別指数は2点が3例、1点が1例で、またmoderate stainは3例、slight stainが1例であった。

5) 悪性巨細胞腫¹⁹⁾は2例で、ともに大腿骨遠位端から発生していた。判別指数は各々1、2であった。後者の例は血管造影にて悪性の疑いが強いと判定された。病理診断では最初aneurysmal bone cystと診断されたが、その後頭蓋骨への転移を来たし、最終的には悪性巨細胞腫と診断されている。

6) hemangiopericytomaは1例であり、尺骨に発生したものであり、多彩な異常血管像を示し、軟部組織への広範な拡がりを有し、hyperstainであった。判別指数は4であった。

7) parosteal sarcomaは1例であり、これは骨膜由来の腫瘍ということで⁶⁾soft tissue extensionについては言及していない。判別指数は2でslight stainを示している(Fig. 13)。本例は単純

X-Pにて特徴のある像を示し診断が十分に可能であり²⁰⁾、血管造影の有用性は少なかった。

次に良性骨疾患について述べる。

8) giant cell tumorは9例であり、10回の血管造影が行われた。1例は手術後再発し再度血管造影を受けている。部位は大腿骨3、胫骨3、腓骨、膝蓋骨、坐骨各1で膝周囲に発生したものが7例を占めた。giant cell tumorの血管造影所見はTable 5に示す如くであり、70%がhyperstainを示し、abnormal vascular courseを示すものが多く、early venous returnも80%に見られた。soft tissue extensionは9例中4例に見られたが、その3例の表面はsmoothであった(Fig. 14)。giant cell tumorは判別指数2点が3例、1点4例と高いものが多く、悪性腫瘍との鑑別³⁾が困難なことが多い。giant cell tumorで判別指数が高く悪性腫瘍との鑑別が問題となる例は全例hyperstainである。一方悪性腫瘍でhyperstainの場合、判別指数3以上のものは79%を占め、giant cell tumorの分布とは大きな差異がある。とりわけsoft tissue extension with rough surfaceおよびencasementの発現率に大きな差異が見られ、hypervasculat malignant bone tumor(24例)においては各々92%, 88%の頻度で見られるのに対し、hypervasculat giant cell tumor(7例)では、両所見は各々14%に見られるに過ぎない。

9) aneurysmal bone cystは4例であり、発生部位は腸管、大腿骨大転子、胫骨、腰椎各1となっていた。1例はmoderate stain、2例はhyperstainを示し、残りの1例はhypovascular patternであった。early venous returnは4例中2例に見られた(Fig. 8)。

10) hemangiomaは3例で手根骨、橈骨尺骨、骨盤各1で、組織診でいずれもhemangioma cavernosumと判明した。そのうちの2例はhypervasculatであり、その血管はイモ虫状あるいは囊状で辺縁はsmoothになっており、本症に特徴的所見と考えられた。他の1例では全くvascularityを認めなかつた。放射線治療により著明な改善を見た例をFig. 15に示す。

11) osteoid osteomaは3例であり、部位は胫

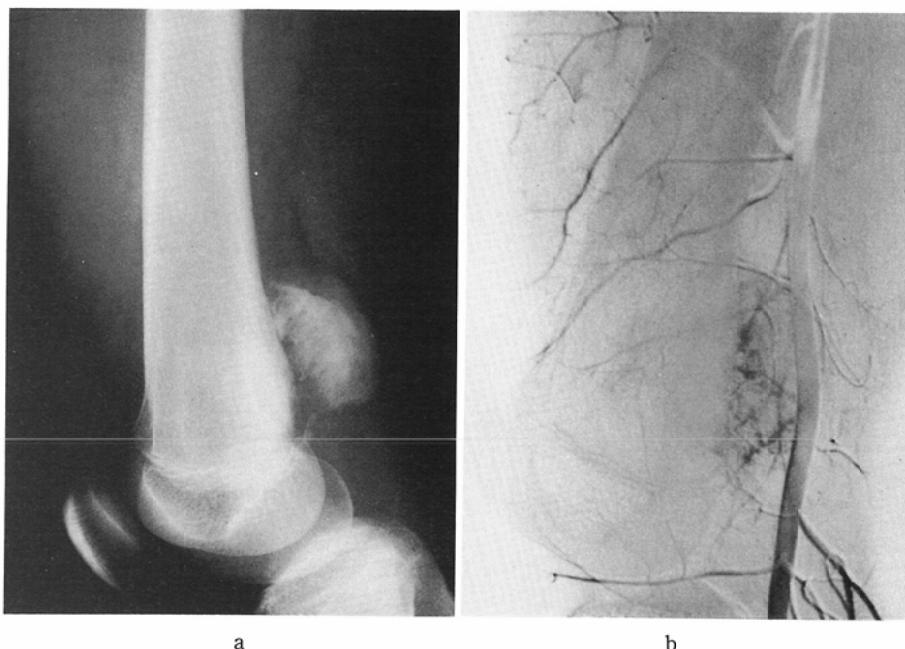


Fig. 13 A case of parosteal sarcoma, 15 years old male.

(a) Plain X-P showed extraosseous bony mass which is characteristic to this disease.

(b) Angiography (subtraction) showed slight stain at the periosteal region and displacement of popliteal artery. Discriminative score was 2.

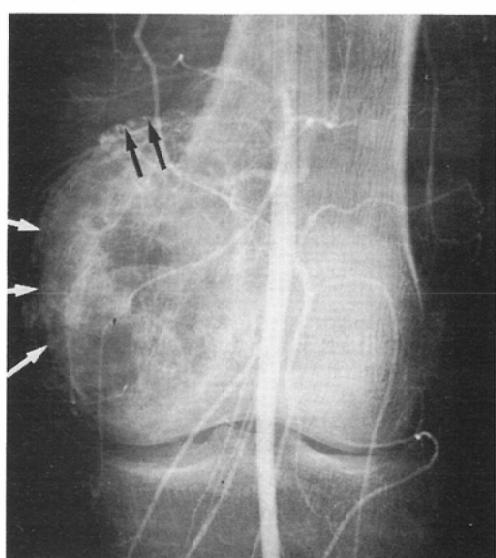


Fig. 14 A case of giant cell tumor at left knee, 22 years old female. Late arterial phase revealed smooth soft tissue extension (white arrow) and early venous return (black arrow). Discriminative score was 2.

骨 2, 大腿骨 1 であった。1 例は cortical thickening の部位に一致して slight stain を認め、他の 1 例では nidus に一致して円形の moderate stain を認めた (Fig. 16)。他の 1 例は no stain であった。

12) その他の良性骨疾患 (exostosis 2, fibrous cortical defect 3, bone cyst 2, fibroma 1, fibrous dysplasia 4) では多くは hypovascular pattern で異常所見に乏しく、判別指数はいずれも 0 であった (Table 10)。2 例の fibrous dysplasia では slight stain を認め、そのうちの 1 例では soft tissue extension with smooth surface を認め、他の 1 例には worm like and saccular dilatation が見られた。fibrous dysplasia 以外の疾患では abrupt angulation or rapid spreading, spiral or tortuous vessel, vascular stretching or curvilinear displacement 等の abnormal vascular course のみを認めることが多かった (Table 5)。

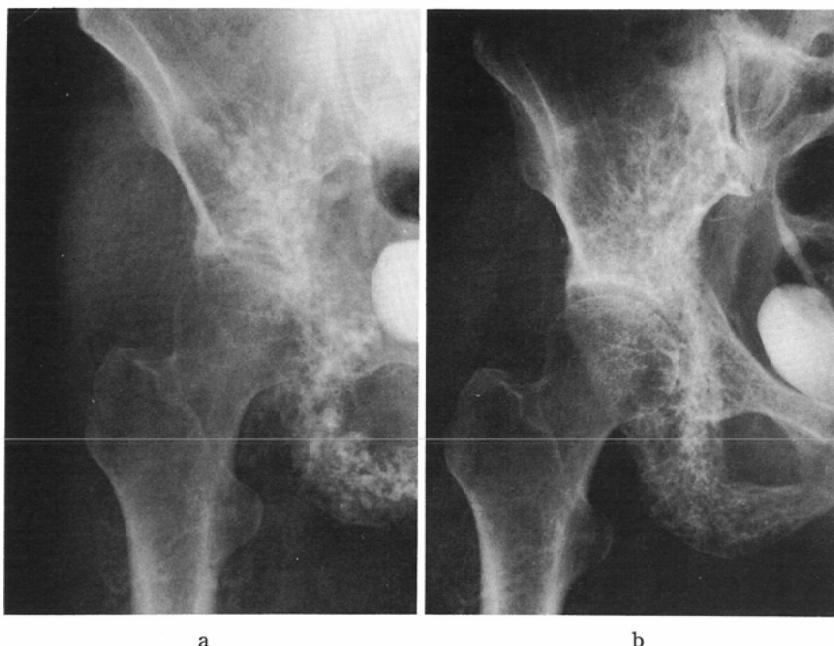


Fig. 15 A case of hemangioma cavernosum, 37 years old female, which was histologically confirmed.

(a) Late arterial phase showed multiple saccular blood pools in the acetabular and ischial region. Discriminative score was 0.

(b) After irradiation (3,900 rads), multiple blood pools were diminished.

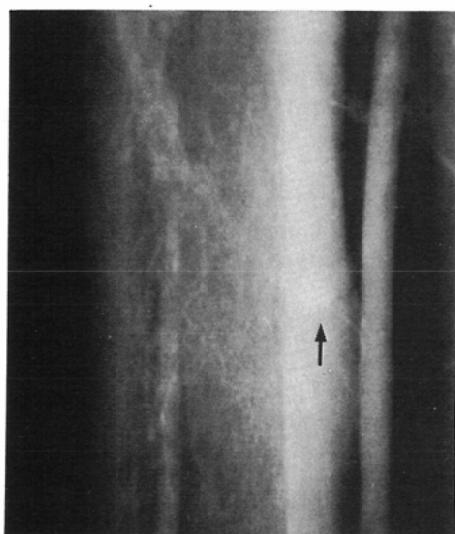


Fig. 16 A case of osteoid osteoma, 18 years old male. Late arterial phase revealed circular tumor stain at the radiolucent area (nidus) in bony cortex (black arrow). Discriminative score was 0.

4. 考 案

骨腫瘍の診断において血管撮影は古くから行われ、その報告も数多い⁴⁾²¹⁾。そのいざれも補助診断法としての血管撮影の有用性に関しては異論がない¹⁾。しかしそれらの殆んどは、各疾患毎にいかなる所見がどの程度見られたかということが述べられているだけであり¹²⁾²²⁾、多彩な骨血管像のいかなる所見が良悪性の判定に有用であり、あるいはどの所見を組み合わせて診断すべきか²³⁾という点について計量診断学的な立場で厳密に論じた報告は少ない²⁴⁾。

本研究では血管撮影に見られる各異常所見の良悪性判別能および疾患（悪性）特異性の程度について分析し、次にどの所見の組み合わせが最も診断に寄与し得るかについて検討した。

今回取り上げた所見は14所見であり^{11)~13)}、良悪性疾患群におけるそれらの発現頻度、 χ^2 値⁸⁾⁹⁾、特異度¹⁵⁾¹⁶⁾を算出した。発現頻度の高い所見が必ずしも良い診断結果をもたらすとは言えない⁸⁾。例

えば、VI) avascular area は悪性群52.8%，良性群で42.9%に見られるが，もしこの所見の有無で良悪性を判定しようとすれば，false positive は42.9%，false negative は47.2%となり満足のいくデータとはならない。但し、II)—(3) vascular stretching or curvilinear displacement のように悪性群での発現率が100%というような場合には，もしこの所見が見られなければ悪性腫瘍は考え難いということは言える。特異度は true negative ratio と定義されている値であるが¹⁵⁾，これは悪性群における所見発現率は何ら考慮されていない。

例えば I)—(1) soft tissue extension with smooth surface は良性群で発現率が17.2%，特異度82.8%となっているが，悪性群における発現率も7.7%と非常に低く，その間に有意差はなく，2つの群を有効に判別する指標とはなり得ない。もし特異度が十分に高く，しかも χ^2 値も同時に高い値を示す所見があれば，それは悪性群で有意に発現率が高く，しかも良性群には起り難いということで十分信頼し得る pathognomonicity を有していると言える。本研究ではこのような所見をいくつか組み合わせることにより見落としを少なくし診断率を向上される¹²⁾ことを計った。

非常に特異度の高い（90%以上）所見を組み合させた A 案では判別指数が 2, 3 の場合，確実に悪性と言える。しかし 0 の場合悪性腫瘍が 5/34 (15%) 含まれることになり，十分な信頼度をもって良性と断定することはできない。この判別指数 0 および 1 (判定困難群) に属する症例は 46 例で，全症例の 63% となる。

特異度の低い所見を組み合せた C 案 (60% 以上), D 案 (50% 以上) では悪性群を良性と判断 (false negative) することはないが判定不能群 (C 案で判別指数 1, 2, 3 群, D 案で 2, 3, 4 群) も各々 29/73 (40%), 27/73 (37%) と多い。

B 案 (特異度 70% 以上) では判別指数 3, 4 を悪性とすると 100% 正しく診断されることになり，0 を良性とすると 4 % の誤診 (false negative) となり，非常に見落としは少なく許容し得るレベルとなる。また判別指数 1, 2 の診断不能例も比較的少ない (23 例 31.5%)。

以上より，骨血管造影の解析にあたっては B 案が最も有用と言え，特異度の低い所見を加えても必ずしも診断率は向上しないという点には注意すべきである。B 案に基づき Table 7 の(a), (b), (c), (d) 4 所見のうち 3 つ以上見られたなら悪性，全く見られなければ良性として良い。また (a), (b), (c) のうち 2 つが見られる場合にも悪性として良い (A 案による)。逆に abnormal vascular course の 2 所見 (e), (f) (Table 7) が同時に見られない場合には悪性腫瘍は考えられないとも言える (D 案による)。

文献的には所見 (a), (b), (c), (d) が悪性腫瘍に特異的に見られ，また tumor stain, vascular displacement, early venous return は非特異的であるという報告は他にも多い^{11, 12)}。一方 abrupt angulation or rapid spreading や spiral or tortuous vessel も tumor vessel として悪性腫瘍に特異的であるとされ¹³⁾，本研究とは異なる点も報告されている。これは従来の血管像解析においては，走行異常，管径不同，分枝の状態等を別個に取り上げて検討せず，tumor vessel, pathological vessel として一括して考察^{3, 4)}してきたためと考えられる。

soft tissue extension は Yaghmai らによって示された所見であり¹¹⁾，単純 X-P にて骨皮質の破壊が殆ど見出せないような症例にも見られ，悪性腫瘍を疑わせる有用所見となる。これは骨 CT 検査でも容易に認められ^{25, 26)}，診断治療の上で重要な示唆を与えてくれる。giant cell tumor や aneurysmal bone cyst において骨皮質が消失し，tumor が骨辺縁より突出して見える場合，その表面は smooth であることが多く，soft tissue extension with smooth surface として rough surface とは異った診断価値を有し，両者の判定は慎重になされるべきである。

血管造影によって良悪性の判別はし得ても最終的な組織診まで下すことは不可能であると言われている^{12, 13)}。本研究においてもある程度の組織学的な推定はし得ても，最終的な診断は不可能であった。

悪性腫瘍は一般的に vascularity が高く，とり

わけ osteosarcomaにおいては hyperstain 77%, moderate stain 23%とその傾向が強く、多彩な血管像を示していた。chondrosarcoma, fibrosarcoma の半数および1例の hemangiopericytoma でも vascularity が高く、判別指数も大きく、これらは血管造影で互いに鑑別することは困難と考えられ、診断にあたっては発生部位、年齢を十分に考慮に入れる必要がある。

chondrosarcoma では vascularity が非常に低いものがあり(22%), 判別指数も低く良性群との判別が困難な例もあるが、その経過は長く悪性度は低いと考えられている。

骨髓腫、ニーイング肉腫、悪性リンパ腫等いわゆる bone marrow tumor¹⁸⁾は他の報告¹¹⁾¹²⁾とはやや異なり、軽度ないし中等度の vascularity を示し、判別指数は全例 1 ないし 2 となっており、互いに鑑別することは困難であり、また良性疾患群との鑑別も問題になると思われる。

良性骨疾患で高い vascularity を示したものは giant cell tumor, aneurysmal bone cyst, hemangioma である。従来、血管造影で giant cell tumor と aneurysmal bone cyst の鑑別は不可能と言われており¹¹⁾²⁷⁾、本研究でも両者を鑑別し得る所見は見い出せなかった。giant cell tumor および aneurysmal bone cyst で悪性腫瘍との鑑別が問題となる hypervasculat tumor では、malignant hypervasculat tumor に比し判別指数が低く、とりわけ特異度の高い soft tissue extension with rough surface, encasement の発現率が低いということで鑑別は可能と考えられる。aneurysmal bone cyst や giant cell tumor では cystic blood space が見られるとの報告が多いが²²⁾²⁸⁾、著者の経験では辺縁不鮮明な斑状濃染が互いに重なり合い、diffuse な濃染像として見えられることが多かった。

hemangioma では 3 例中 2 例で辺縁が滑らかなイモ虫状あるいは囊状の blood pool が多数集合して見られ、本症の特徴的所見¹¹⁾と考えられた。

giant cell tumor, aneurysmal bone cyst, hemangioma では全く vascularity を示さないものが各々 20%, 25%, 33% に見られ、hypovascular

pattern の場合にもこれらを除外することができない点には留意すべきである。

osteoid osteoma は nidus に一致する特異的な²⁹⁾circular tumor stain が 3 例中 1 例に認められ、血管像のみで本症と診断し得た。これは本症の病因を考える上で興味のある所見であった。

hypovascular benign bone tumor²²⁾として今回の経験では exostosis, bone cyst, fibroma が挙げられるが、血管造影では abnormal vascular course とりわけ vascular displacement が主な所見で、互いに鑑別は不可能であり、むしろ単純 X-P を詳細に解析すべきである。単純 X-P にて osteosarcoma に類似した fibrous cortical defect¹¹⁾も異常血管像は見られず、osteosarcoma との鑑別は容易であった。

fibrous dysplasia 4 例中 2 例は中等度の vascularity が認められ、その 1 例では soft tissue extension with smooth surface のパターンを示していた。fibrous dysplasia は病変の進展状態により種々の血管像を呈すると言われており¹¹⁾³⁰⁾、moderate stain を示した 2 例は active stage にあったものと推定される。soft tissue extension が見られた 1 例では既往歴より判断して pathological fracture が関与している可能性は十分に考えられた。

血管撮影は治療効果の判定にも有用であり²²⁾、chondrosarcoma の 1 例では判別指数が 4 から 3 へと減じ、avascular area も拡大し、hemangioma の 1 例では blood pool も減少し、病巣範囲も小さくなっていた。

以上述べてきたように、骨腫瘍の診断において、血管撮影は詳細に検討するなら腫瘍の拡がり、良悪性の判定、悪性度の判定、さらに治療効果の判定に重要な情報を提供してくれる。さらに今後拡大撮影や薬理学的血管造影も適宜試みられるべきものと考えられる。また最近カテーテルを通じての抗癌剤投与や塞栓術が各種臓器に対して行われ、その有用性が報告されており⁶⁾、我々もまた骨腫瘍に対し同様の試みを行い、ある程度の有用性を確認している。

5. 結論

過去10年間に原発性骨腫瘍70例に対し73回の血管造影が行われた。それらの解析のため14所見を選び出し、各所見の良悪性両群における発現頻度、 χ^2 値、特異度を算出し、それらの診断能を比較検討した。その結果、(a) soft tissue extension with rough surface, (b) encasement, (c) irregular blood pool, (d) rapid tapering or abrupt termination の4所見が良悪性的判別に有用と考えられた。これらの所見が見られた場合を1点とすると、その合計点(判別指数)が3点以上では100% (26/26), 2点で75% (9/12), 1点45% (5/11)で悪性となり、0点では96% (23/24) 良性との結果が得られた。各疾患別では osteosarcoma, hemangiopericytoma, fibrosarcoma, chondrosarcoma 等が判別指數も高く容易に悪性と診断し得るが、さらに進んで組織学的に鑑別することは困難であった。chondrosarcoma の一部や bone marrow tumor では良性疾患と鑑別が困難なものがあった。benign hypervasculat bone tumor としては giant cell tumor, aneurysmal bone cyst, hemangioma 等が経験されたが判別指數は低かった。benign hypovascular bone tumor としては bone cyst, fibroma, exostosis, fibrous cortical defect 等が挙げられ、血管造影で異常所見を指摘することはできなかった。また血管撮影は放射線治療効果の判定にも有用と考えられた。

稿を終えるにあたり、本研究に御協力いただきました東北大学放射線医学教室および整形外科学教室の諸先生方に感謝いたします。

本論文の要旨は第66回日本医学放射線学会北日本地方会において報告した。

文 献

- 1) 立石昭夫：骨腫瘍の補助的診断法とその意義—特に血管撮影法について—。整形外科, 26: 289-301, 1975
- 2) Begg, A.C.: The vascular pattern as an aid to the diagnosis of bone tumours. J. Bone Joint Surg., 37B: 371-382, 1955
- 3) Herzberg, D.L. and Schreiber, M.H.: Angiography in mass lesions of the extremities. Am. J. Roentgenol. 111: 541-546, 1971
- 4) Strickland, B.: The value of arteriography in the diagnosis of bone tumours. 32: 705-713, 1959
- 5) 本間哲夫, 桜井 実, 増田高行, 笹野伸昭：骨軟部腫瘍18例(症例3). 臨・整・外, 13: 451-455, 1978
- 6) Joseph, M.M., Richard, H.G. and Ralph, C.M.: Bone tumors-Diagnosis and Treatment. pp. 51, 1980, J.B. Lippincott Company, Philadelphia, Tronto
- 7) Feldman, F., Casarella, W.J., Dick, H.M. and Hollander, B.A.: Selective intra-arterial embolization of bone tumors. Am. J. Roentgenol., 123: 130-139, 1975
- 8) Pipberger, H.V., Klingeman, J.D., Cosma, J.: Computer evaluation of statistical properties of clinical information in the differential diagnosis of chest pain. Method. Inform. Med., 7: 79-93, 1968
- 9) 松林 隆, Lodwick, G.S.: Computer analysis of bone tumor roentgenograms using discriminant functions. 日本医政会誌, 31: 1007-1025, 1971
- 10) Sasaki, T. and Sugiura, J.: Serial macroradiography applied to the study of lesions of the extremities. Clin. Radiol., 31: 327-333, 1980
- 11) Yaghmai, I.: Angiography of bone and soft tissue lesions. 1979, Springer-Verlag, Berlin Heidelberg New York
- 12) Chiappa, S., Galli, G. and Gennari, L.: Vascular Roentgenology. pp. 469-478, 1964. The Macmillan Company, New York
- 13) Voegeli, E. and Fuchs, W.A.: Arteriography in bone tumours. Brit. J. Radiol., 49: 407-415, 1976
- 14) McNeil, B.J., Keeler, D.E. and Adelstein, S. J.: Primer on certain elements of medical decision marking. N. Engl. J. Med., 293: 211-215, 1975
- 15) Sullivan, D.C., Taylor, K.J.W. and Gottschalk, A.: The use of ultrasound to enhance the diagnostic utility of the equivocal liver scintigraph. Radiology, 128: 727-732, 1978
- 16) Lusted, L.B.; Decision-marking studies in patient management. N. Eng. J. Med., 284: 416-424, 1971
- 17) Kesselring, Penn, W.: Radiological aspects of 'classic' primary osteosarcoma: Value of some radiological investigations, Diagnostic imaging, 51: 78-92, 1982
- 18) Schajowicz, F.: Tumor and tumorlike lesions of bone and joints. pp. 243-302, 1981, Springer-Verlag, New York, Heidelberg Berlin
- 19) Yaghmai, I.: Malignant giant cell tumor of

- the soft tissue: Angiographic manifestations. Radiology, 120: 329-331, 1976
- 20) Meschan, I.: Analysis of roentgen signs in general radiology, Vol. 1. pp. 362-363, 1973, W. B. Saunders Company, Philadelphia
- 21) Dos Santos, R.: Arteriography in bone tumours. Amer. J. Bone joint Surg., 32B: 17-29, 1950
- 22) Yaghmai, I., Shamsa, A.Z., Shariat, S. and Afshari, R.: Value of arteriography in the diagnosis of benign and malignant bone lesions. Cancer, 27: 1134-1147, 1971.
- 23) Ney, F.G., Feist, J.H., Altemus, L.R. and Ordinario, V.R.: The characteristic angiographic critieria of malignancy. Radiology, 104: 567-570, 1972
- 24) Kauffmann, G.W., Stercker, E.P., Bammert, J. Meyer, P. Wenz, W.: Angiomorphometry in malignant tumors and inflammatory disease. Investigative Radiology, 15: 475-480, 1980
- 25) Levine, E., Lee, K.R., Neff, J.R., Maklad, N.F., Robinson, R.G. and Preston, D.F.: Comparison of computed tomography and other image modalities in the evaluation of musculoskeletal tumors. Radiology, 131: 431-437, 1975
- 26) Heelan, R.T., Watson, R.C. and Smith, J.: Computed tomography of lower extremity tumors. Am.J. Roentgenol., 132: 933-937, 1979
- 27) Lindbom, A., Söderberg, G., Spjut, H.J. and Sunqvist, O.: Angiography of aneurysmal bone cyst. Acta Radiol., 55: 12-16, 1960
- 28) Billings, K.J. an Werner, L.G.: Aneurysmal bone cyst of the first lumbar vertebrae. Radiology, 104: 19-20, 1972
- 29) Lindbom, A., Lindvall, N., Söderberg, G., Spjut, H.: Angiography in osteoid osteoma. Acta Radiol., 54: 327-333, 1960
- 30) Lin, J.P., Goodkin, R., Chase, N.E. and Kricheff, I.I.: The angiographic features of fibrous dysplasia of the skull. Radiology, 92: 1275-1280, 1969