

doi: 10.3978/j.issn.2095-6959.2021.07.040

View this article at: <https://dx.doi.org/10.3978/j.issn.2095-6959.2021.07.040>

· 临床病例讨论 ·

1 例儿童肝罕见组织学形态上皮样炎性肌纤维母细胞肉瘤的临床病理分析

程波¹, 丁姗姗¹, 郭静利², 许琳¹, 赵欢¹, 孙锁柱¹

(1. 火箭军特色医学中心病理科, 北京 100088; 2. 火箭军特色医学中心心理科, 北京 100088)

[摘要] 采用光镜、免疫组织化学及荧光原位杂交等方法分析1例以微囊性、腺泡样及实性结构为主的儿童肝上皮样炎性肌纤维母细胞肉瘤(epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma, EIMS)临床病理特征, 结合文献复习, 做出相应鉴别。患者为3岁女童, 肝巨大占位。术后病理检查: 镜下见肿瘤与肝组织界限较清, 肿瘤主体部分呈疏密不均的微囊样或肺泡样结构, 囊壁被覆多角形或短梭形上皮样细胞, 囊腔内大量淋巴细胞、浆细胞、组织细胞浸润; 局部上皮样细胞呈腺泡样至实性片状。免疫组织化学: 上皮样细胞CK18、Vim、Desmin强阳性, ALK阴性, Ki-67指数约3%。综合分析后诊断为EIMS, 术后9个月随访, 患儿状况良好, 无肿瘤复发等异常。本例特殊组织学形态EIMS, 未见有文献报道描述, 诊断主要依据形态学、免疫组织化学及分子检测, 临床病理上需和多个肿瘤鉴别。治疗以手术扩大切除为主, 需密切随访, 进一步了解其生物学行为及预后。

[关键词] 炎性肌纤维母细胞性肿瘤; 上皮样; 罕见; 肝

Clinicopathologic analysis of a case of rare histopathologically morphologic epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma in the liver of children

CHENG Bo¹, DING Shanshan¹, GUO Jingli², XU Lin¹, ZHAO Huan¹, SUN Suozhu¹

(1. Department of Pathology, Rocket Force Medical Center, Beijing 100088; 2. Department of Psychology, Rocket Force Medical Center, Beijing 100088, China)

Abstract The clinicopathological features of 1 case of pediatric liver epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma (EIMS) with microcystic, acinar and solid structures were analyzed by light microscopy, immunohistochemistry and fluorescence in situ hybridization, and the corresponding differentiation was made based on literature review. The patient was a 3-year-old girl with a large liver space. Postoperative pathologic microscopy showed that the tumor was clearly bounded from the liver tissue, and the main body of the tumor presented an uneven microcystic or alveolar-like structure, with the cyst wall covered with polygonal or short-spindle epithelioid cells, and a large number of lymphocytes, plasma cells and tissue cells infiltrated in the cyst cavity and stroma. Local epithelioid cells were acinar to solid sheets. Immunohistochemistry: epithelial tumor cells CK18, Vim, and Desmin were

收稿日期 (Date of reception): 2020-07-11

通信作者 (Corresponding author): 孙锁柱, Email: 1316195726@qq.com

strongly positive, and ALK was negative, with the Ki-67 index of about 3%. After comprehensive analysis, the patient was diagnosed as epithelioid inflammatory myofibroblastic tumor. The patient was followed up 9 months after the operation and was in good condition without tumor recurrence or other abnormalities. The special histological morphology of this case is EIMS, which has not been described in the literature, and the diagnosis is mainly based on morphological, immunohistochemical and molecular detection. Clinically and pathologically, multiple tumors need to be identified. The main treatment is surgical resection, and close follow-up is needed to understand its biological behavior and prognosis.

Keywords inflammatory myofibroblastic tumor; epithelioid; rare; liver

炎性肌纤维母细胞瘤 (inflammatory myofibroblastic tumor, IMT) 是一组形态及生物学行为从良性、中间性至明显恶性的肿瘤谱系, 上皮样炎性肌纤维母细胞肉瘤 (epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma, EIMS) 为其恶性亚型, 侵袭性强, 预后差^[1]。本文报告1例发生于儿童肝脏, 具有上皮样形态及免疫表型, 呈罕见微囊样、腺泡样及实性片状生长方式, 缺乏恶性特征, 表现为形态学中间型的炎性肌纤维母细胞性肿瘤。

1 临床资料

患儿, 女, 3岁, 因发现“肝巨大占位2个月”入院。患儿偶然跌倒后腹痛, 腹部增强CT示: 肝巨大占位, 约12.4 cm×8.0 cm×11.7 cm, 病变呈蜂窝状, 实体部分明显强化, 内部见多发斑片状、裂隙状和小圆形低强化及无强化区(图1A); 行肝组织活检: 疑似肝母细胞瘤。会诊: 未见明确肿瘤成分。手术探查: 少量淡黄色腹水, 右肝触及大小约15 cm×14 cm肿瘤灶, 表面色灰白, 触之质硬, 累及左肝内叶, 肝十二指肠韧带及腹腔干未见肿大淋巴结, 腹腔、盆腔及网膜未见异常结节。由于肿瘤术前活检诊断困难, 需术后病理常规, 结合免疫组织化学及分子检测, 综合分析方能明确诊断, 术中快速冰冻切片无法明确肿瘤性质, 且患儿年龄小, 肿瘤局限于肝, 因此术中未行快速冰冻病理检查, 采取右三肝切除术。目前为术后9个月, 患儿一般情况良好, CT(图1B)等各项检查未提示有肿瘤复发。

1.1 标本处理及实验方法

术后标本经4%中性甲醛固定, 石蜡包埋, 4 μm连续切片, 行常规HE染色及免疫组织化学染色, 光镜观察。

免疫组织化学采用EnVision二步法。所用一抗Vimentin、CK、CK18、CK19、CKAE1/AE3、

CK7、Hep、Desmin、SMA、Calponin、Myoglobin购自福州迈新生物技术开发有限公司; CD3、CD20、CD38、CD138、CD163、CD21、CD23、CD35、ALK、D2-40、AAT、CD99、CD34、EMA、CK20、S-100、CD117、Dog-1、Bcl-2、HMB45、Calretinin、MC、D2-40购自北京中杉金桥生物技术有限公司。染色步骤按试剂盒说明书进行, 并设阳性及阴性对照, DAB显色。肿瘤细胞质、细胞膜或细胞核呈棕黄色(不同抗体部位不同)即判定为阳性。

EBER原位杂交: 标本均经过4%中性甲醛液固定, 常规石蜡脱水、包埋、切片、烤片、脱蜡、消化、脱水干燥、加探针、封固、杂交(使用雅培公司自动杂交仪进行杂交)、一抗孵育、二抗孵育、整合剂孵育、显色、对比染色、脱水、透明、封片。

SYT-SSX融合基因检测: 1)RNA抽提。取代表性肿瘤组织蜡块儿5 μm切片10张, 置于1.5 mL消毒离心管中。加入二甲苯1 mL脱蜡, 37 °C, 10 min。离心去上清, 重复1次。然后用1 mL 100%乙醇置换二甲苯3次。离心后去上清, 管底见白色细腻沉淀, 置于空气中干燥。蛋白酶K (55 mg/mL), 55 °C消化过夜; 95 °C加热10 min灭活蛋白酶K。加1 mL抽提液于离心管中, 混匀, 室温15 min; 然后加入200 μL氯仿, 剧烈震荡15 s; 离心, 取上清于另1个已消毒过的离心管中, 加等体积异丙醇, -20 °C, 沉淀1 h。离心, 弃上清。加75%冷乙醇1 mL洗涤1次, 离心, 弃上清。最后用DEPC水溶解RNA, -70 °C保存。2)RT-PCR。取RNA 1 μg于30 μL的反转录反应体系包括DEPC水12 μL, 随机引物1 μL, 5×缓冲液5 μL, dNTP (10 mmol/L) 5 μL, RNasin (50 U/μL) 0.5 μL, MMLV-RT (200 U/μL) 1 μL。37 °C孵育1 h, 95 °C 5 min灭活反转录酶, -20 °C保存。3)聚合酶链反应。聚合酶链反应为25 μL反应体系包括双蒸水16.5 μL, 10×缓冲液2.5 μL, 氯化镁(25 mmol/L) 1.5 μL, dNTP

(10 mmol/L)1.0 μ L, 正向、反向引物(15 pmol/ μ L)各0.5 μ L, Taq聚合酶(5 U/ μ L) 0.5 μ L, cDNA模板2.0 μ L。扩增引物见表1。扩增条件: 94 $^{\circ}$ C预变性5 min, 进入循环94 $^{\circ}$ C变性50 s, 58 $^{\circ}$ C退火30 s, 72 $^{\circ}$ C延伸1 min, 共40个循环, 末次延伸7 min。以双蒸水代替模板作为阴性对照。以看家基因PBGD作为内参照, 反映反转录和扩增的效果。扩增产物在2%琼脂糖凝胶上电泳, 溴乙啶染色后, 置紫外灯下观察。

1.2 标本观察及病理诊断

肉眼观: 肝及肿瘤组织总体积为19 cm \times 10 cm \times 8 cm, 切面见巨大灰白色瘤结节, 边界清, 体积约10 cm \times 8 cm \times 6 cm, 瘤结节切面灰白灰红色, 质软。

镜下观: 在低倍光镜下, 肿瘤边界清, 与肝组织交界区有纤维包膜, 肿瘤主体呈囊实性生长, 囊性区为疏密不均的微囊样、肺泡样结构, 囊壁被覆多角形或短梭形上皮样细胞, 囊腔内

大量淋巴细胞、浆细胞、单核样组织细胞浸润, 其所占比例较微囊被覆细胞更为显著, 可有少数淋巴滤泡形成, 局部间质水肿; 实性区, 上皮样细胞呈腺泡样生长, 并逐渐过渡至实性片状, 其间混合有大量淋巴细胞、浆细胞和组织细胞(图2~5)。高倍镜下, 上皮样细胞的细胞质嗜酸或空亮, 细胞核大、空泡样, 部分轻度异型, 核仁明显, 核分裂罕见, 可见R-S样细胞(图6、7)。不同结构区域细胞成分一致, 仅排列方式不同。

免疫组织化学: 上皮样细胞CK、CK18、Vim、Desmin、CD99强阳性, SMA局灶弱阳性; 组织细胞CD68、CD163阳性; 其间偶见少量散在或小灶聚集的CD21、CD23阳性滤泡树突细胞; ALK、GPC3、Hep、AFP、CK其他分型、CD117、Dog-1、S-100、IGg、IGg4、Myoglobin、Myosin、Calretinin、D2-40等均为阴性, Ki-67指数<3%(图8~13)。EBER原位杂交全肿瘤阴性。滑膜肉瘤SYT-SSX融合基因检测阴性。

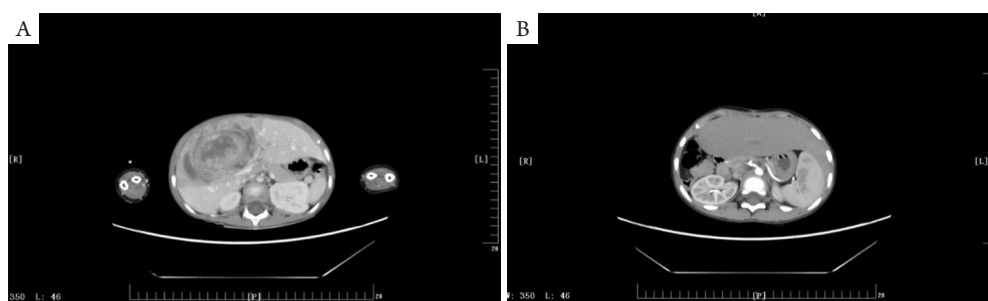


图1 术前CT显示肝巨大占位, 病变实体部分明显强化, 内部见多发低强化和无强化区(A); 术后9个月复查CT显示肝残缘和残肝内未见异常强化灶(B)

Figure 1 Preoperative CT shows a huge mass of the liver, with obvious enhancement of the lesion entity, and multiple low-enhancement and no-enhancement areas (A); CT reexamination 9 months after the operation shows no abnormal intensification of liver remnant and liver remnant (B)

表1 PCR寡核苷酸引物序列及产物长度

Table 1 Primer sequences and product length of PCR oligonucleotide

基因	引物名称	序列(5'-3')	产物长度/bp
PBGD	PBGD-S	TGTCTGGTAACGGAAATGCGGCTGCAAC	127
	PBGD-A	TCAATGTTGCCACCACACTGTCCGTCT	
SYT-SSX	SYT	CCAGCAGGCCTIATGGATA	98
	SSX	TTTGTGGGCCAGATGCTTC	
SYT-SSX1	SYT	CCAGCAGGCCTIATGGATA	118
	SSX1	GTGCAGTGTGTTCCCATCG	
SYT-SSX2	SYT	CCAGCAGGCCTIATGGATA	118
	SSX2	GCACAGCTCTTCCATCA	

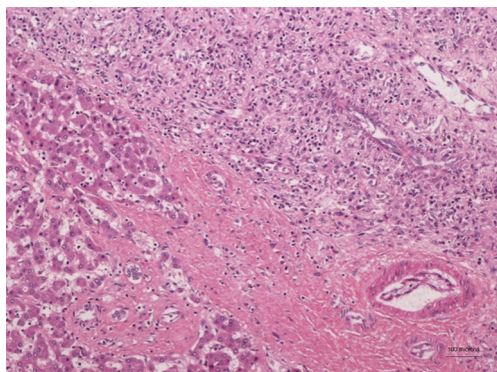


图2肿瘤与肝组织交界(HE, × 100)

Figure 2 Junction of tumor and liver tissue (HE, × 100)

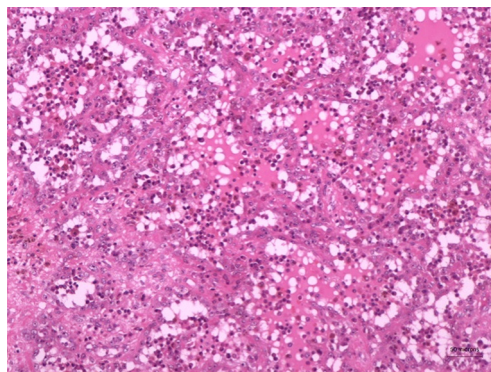


图5肺泡样微囊性结构区(HE, × 200)

Figure 5 Alveolar microcystic structure area (HE, × 200)

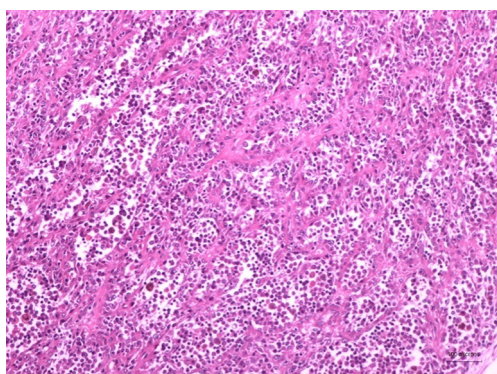


图3 肿瘤细胞形成腺泡样结构, 腔内大量混合性炎细胞 (HE, × 100)

Figure 3 Tumor cells form an acinar structure with a large number of mixed inflammatory cells in the lumen (HE, × 100)

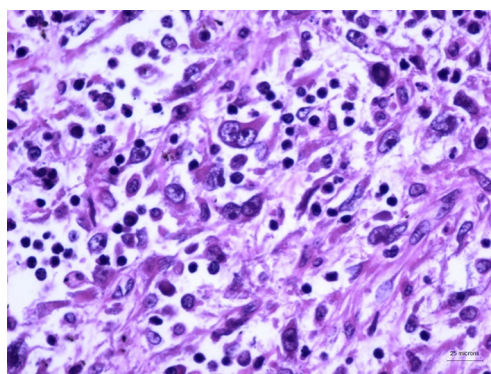


图6 肿瘤细胞呈多角形, 核大、空泡样, 核仁显著, 可见R-S样细胞(HE, × 400)

Figure 6 Tumor cells are polygonal in shape, and vacuolated, with large nuclei, prominent nucleoli, and R-S-like cells (HE, × 400)

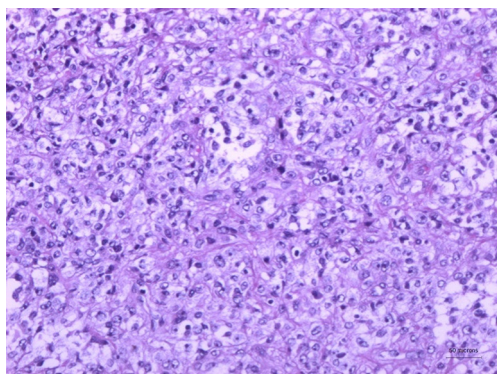


图4 上皮样肿瘤细胞呈腺泡样结构, 并过渡至实性结构 (HE, × 200)

Figure 4 Epithelioid tumor cells show acinar structures and transits to solid structures (HE, × 200)

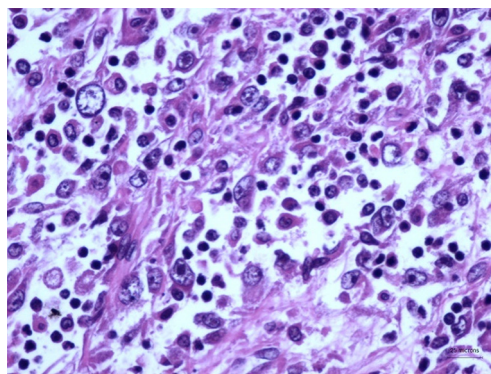


图7 伴有异型性的肿瘤细胞, 胞核空泡样(HE, × 400)

Figure 7 Tumor cells with atypia, and vacuolated nuclei (HE, × 400)

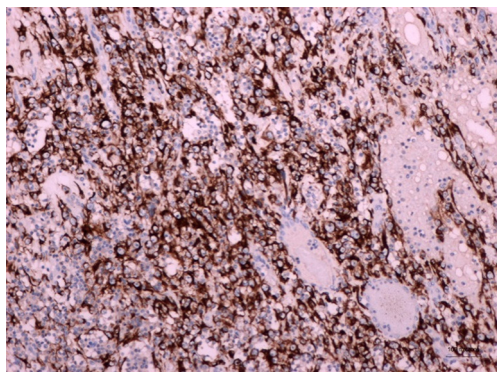


图8 肿瘤细胞CK18包膜强阳性(IHC, × 100)
Figure 8 Tumor cells with strong positive envelop of CK18 (IHC, × 100)

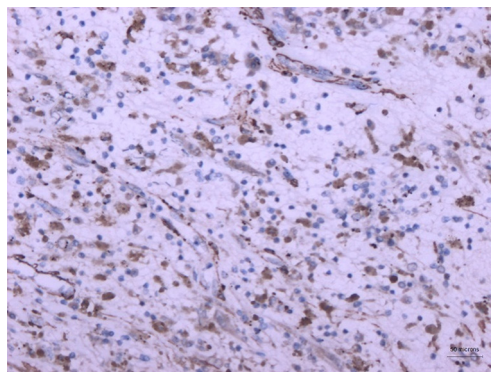


图11 肿瘤间质疏松水肿区, SMA呈较弱阳性(IHC, × 200)
Figure 11 Tumor stromal edema region, and the SMA weakly positive (IHC, × 200)

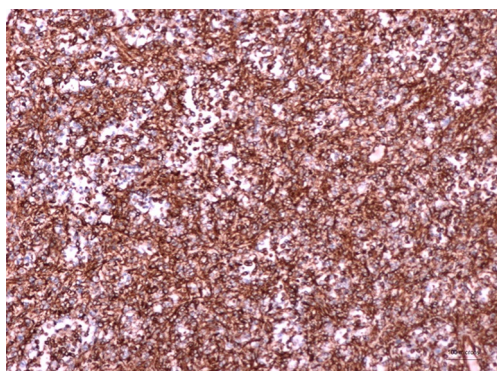


图9 肿瘤组织Vim弥漫强阳性(IHC, × 100)
Figure 9 Diffuse strong positive Vim in tumor tissues (IHC, × 100)

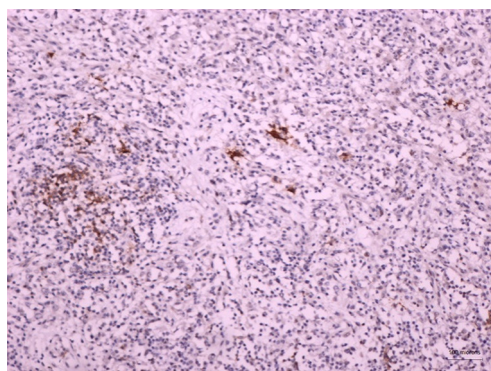


图12 散在少数CD21阳性滤泡树突细胞(IHC, × 100)
Figure 12 Scattered CD21 positive follicular dendritic cells (IHC, × 100)

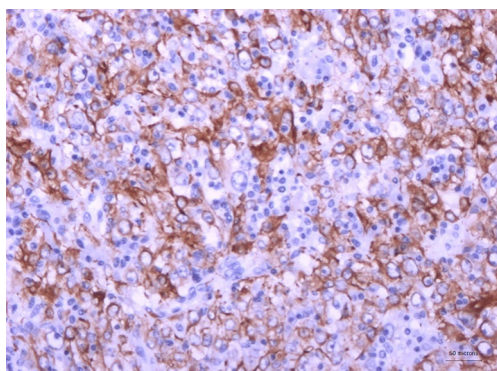


图10 上皮样肿瘤细胞Desmin强阳性(IHC, × 200)
Figure 10 Epithelioid tumor cells shows strong positive Desmin (IHC, × 200)

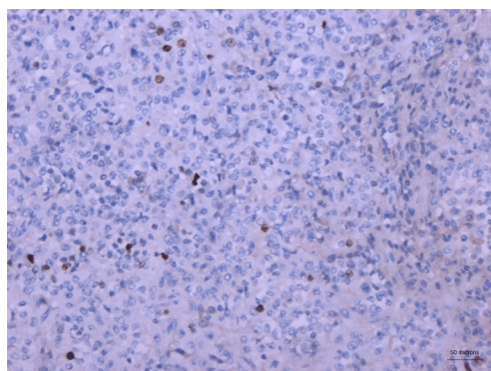


图13 偏低的Ki-67增殖指数(IHC, × 200)
Figure 13 Low Ki-67 increment (IHC, × 200)

病理诊断: (肝)结合形态、免疫组织化学及相关分子检测, 考虑为EIMS。

2 讨论

IMT好发于儿童和青少年, 发生部位广泛, 但多见于胸腹部内脏软组织^[2]。最初被称为“炎症假瘤”, 由于存在复发和转移的可能, 以及间变性淋巴瘤激酶(anaplastic lymphoma kinase, ALK)基因重排的发现, 后被描述为一种独特的肿瘤性病变。其本质为纤维母细胞、肌纤维母细胞增生性, 常伴有大量炎细胞浸润, 具有中间性生物学行为的真性肿瘤。

IMT经典组织学形态为梭形肿瘤细胞弥漫性生长于黏液性或胶原性间质内, 其间大量淋巴细胞、浆细胞、或组织细胞浸润。Coffin等^[3]曾将其分为3种组织学类型: 黏液样/血管型或结节性筋膜炎样型、致密梭形细胞型或纤维组织细胞瘤样型、少细胞纤维型或纤维瘤病样型。不同形态可单独存在或混合存在, 并无临床预后意义, 但对于识别诊断本病有帮助。当肿瘤细胞表现出恶性特征时, 需要考虑炎症性肌纤维母细胞肉瘤。Cook等^[4]在包含73例IMT的研究中发现: 有4例组织学表现为大的多边形细胞, 细胞核大, 核仁明显, 并且呈现出较经典IMT更强的侵袭性行为。针对这一独特现象, 他们首次提出了“圆形细胞转化”的术语。2011年, Mariño-Enríquez等^[5]也描述了这种特殊形态及生物学行为的IMT, 并首次命名为“上皮样炎症性肌纤维母细胞肉瘤”。随后文献^[6]提及的上皮样形态IMT时均以EIMS出现, 且形态学描述及临床转归均较一致。Yu等^[7]报道了5例EIMS, 表现出与上述一致的组织学特征, 即大的上皮样细胞、双嗜性细胞质、泡状胞核和显著的核仁, 核分裂象易见(平均20/10 HPF)。本例儿童肝巨大肿物, 组织学形态复杂: 大量混合性炎细胞及组织细胞, 与轻度异型的短梭形/上皮样细胞混杂分布, 这使得该肿瘤呈现出类似间变性淋巴瘤中可见到的某种形态模式。经免疫组织化学标志分析后, 可准确描述为: CK、CK18、Vim、Desmin阳性上皮样肿瘤细胞呈微囊样、腺泡样及实性型生长模式, 疏松水肿性与胶原性间质均可见到, 微囊腔及间质内大量淋巴细胞、浆细胞、组织细胞浸润, 其间偶见单个散在或小灶性聚集的CD21阳性的滤泡树突细胞。肿瘤细胞核分裂罕见, 部分可有轻度异型, Ki-67增殖指数约3%。该形态极为罕见, 未见文献报道描述, 但其细胞成分与炎症

肌纤维母细胞性肿瘤一致, 即增生性短梭形或上皮样肌纤维母细胞/纤维母细胞、混合性炎细胞以及疏松不一的间质。基于上述分析, 诊断为肝EIMS。

除组织形态的特殊性外, 本例肿瘤在免疫表型上也呈现出了与传统IMT和EIMS不尽相同的特点。传统梭形细胞IMT, 以SMA和EMA阳性多见, Desmin和CK阳性表达率偏低; 而EIMS多呈Desmin和ALK阳性, 且Ki-67增殖指数较高。据报道^[5], 在EIMS中, 可检测到Desmin(10/11)、SMA(4/8)、CD30(8/8)和ALK(12/12)阳性。本例肿瘤在具有明确上皮样形态和免疫表型的同时, 肌源性分化上表现为较原始的标志物Desmin阳性, 而成熟性标志SMA仅有局灶弱阳性, 这一点似乎符合EIMS, 但ALK的阴性以及Ki-67的低增殖指数, 又与EIMS差异较大。因此我们考虑这一罕见组织学形态的肿瘤是否代表了IMT中具有上皮样形态及免疫表型, 但生物学行为偏良性或低度恶性的特殊亚型。

在分子遗传学上, IMT具有异质性, 存在ALK、ROS1及PDGFR β 等基因克隆性重排, 其中研究最多的是染色体2p23区域出现的ALK重排, 该基因通过染色体易位可与多种伙伴基因(*CLTC*、*RANBP2*、*EML4*、*TPM3*、*TPM4*等)形成融合基因, 致使ALK蛋白C末端酪氨酸激酶区激活并过表达, 与不同的伙伴基因融合导致了蛋白表达的不同定位, 如ALK与TPM3、TPM4融合, 显示细胞质阳性; 与RANBP2蛋白融合则显示核膜阳性, 因为RANBP2是定位于核孔的大分子蛋白。免疫组织化学ALK的阳性表达见于约50%的IMT^[8-9], 及绝大多数EIMS^[6]。王秋鹏等^[10]报道的7例胃肠道IMT中, 仅2例免疫组织化学ALK阳性。在IMT中, 免疫组织化学检测ALK阳性率为10%~100%^[11]。本例患者组织学形态特殊, 首先, 不具备传统IMT组织学结构特征, 但肿瘤细胞形态和免疫表型呈上皮样肌纤维母细胞特征, 且肿瘤所含细胞成分与IMT一致; 其次, 该上皮样肿瘤细胞缺乏明显恶性特征和侵袭性生长行为, 以及ALK免疫组织化学染色阴性。经文献检索, 未见与本例较为一致的病例报道, 因此, 排除其他软组织、淋巴造血以及低分化上皮来源肿瘤后, 考虑本例患者为罕见EIMS。

针对此例肿瘤诊断过程中的不同观点, 临床上须与以下疾病鉴别: 1)炎症假瘤样滤泡树突肉瘤(follicular dendritic sarcoma, FDC)。FDC为生发中心滤泡树突细胞起源的一种罕见低度恶性

肿瘤, 炎性假瘤样FDC更为罕见, 通常与周围组织分界清晰, 病理形态与炎性假瘤相似, 主要由梭形、椭圆形或圆形肿瘤细胞呈环状、层状或单个散在分布, 核分裂罕见, 背景中弥漫浸润大量炎细胞(主要是浆细胞、淋巴细胞和少量中性粒细胞, 有时形成淋巴滤泡), 免疫表型CD21、CD23、CD35阳性, 通常不表达Desmin。另外EBER原位杂交阳性, 而且是诊断炎性假瘤样FDC的必要条件^[12-13]。本例的组织学虽可见少量散在CD21阳性FDC, 但数量过少, 并非肿瘤性, 且EBER原位杂交为阴性, 因此可排除炎性假瘤样FDC。2) 胃肠外间质瘤。经典间质瘤组织学表现为梭形或短梭形肿瘤细胞实性生长, 但也可具有形态多样性, 本例在诊断过程中需要和上皮样、伴有炎细胞浸润的间质瘤相鉴别, 通过免疫组织化学CD117、Dog-1阴性, CK、Desmin等阳性, 可以排除。3) 肝母细胞瘤。为小儿最常见肝恶性胚胎性肿瘤, 多见于3岁以下, 临床多有AFP升高。本例肿瘤的罕见组织学模式促使我们多方向考虑, 将肝母细胞瘤纳入了一线鉴别诊断。免疫组织化学显示肿瘤细胞CK18阳性, 但Hep、GPC3、AFP均为阴性, 患儿实验室检查未见AFP升高, 因此排除肝母细胞瘤诊断。4) 滑膜肉瘤。该病好发于较大儿童和青少年, 组织学和免疫表型上可有上皮和间叶双相分化, 呈现出上皮样腺样、实性巢团样结构以及梭形细胞弥漫生长结构, 通常炎细胞很少。95%以上的滑膜肉瘤具有特异性遗传学特征, 即18号染色体上的SYT基因与X染色体上的SSX(SSX1、SSX2、SSX4)发生融合^[14]。本例免疫组织化学结果显示: 肿瘤细胞的CK、CK18、Vim均为弥漫阳性, 呈双相表达, 虽其罕见组织学形态与经典滑膜肉瘤不符。因此本研究进行了SYT-SSX融合基因检测, 结果为阴性, 可将其排除。5) 恶性间皮瘤。为具有双向分化的少见恶性肿瘤, 分为弥漫性和局限性, 局限性可见于肝^[15], 但非常罕见, 仅有个别研究报道^[16]。本例免疫表型呈双相分化, 但间皮相关指标Calretinin、MC、D2-40均为阴性, 可排除恶性间皮瘤可能。6) IgG4相关性病变。这是近几年才被认识的一种自身免疫性系统性疾病, 以血清中IgG4水平升高、组织和器官中大量IgG4阳性浆细胞弥漫性浸润、多灶性纤维化与闭塞性静脉炎为其特征。本例镜下可见大量浆细胞浸润, 但免疫组织化学IgG4为阴性, 患儿临床也未发现血清IgG4水平升高, 因此不符合该诊断。7) 炎症性恶性纤维组织细胞瘤。该病好发于中老年人群的软组织肉瘤, 未见有

20岁以下报道^[17], 形态学上由梭形或多形性肿瘤细胞伴大量炎细胞构成, 肿瘤细胞具有明显恶性特征, 异型显著, 核分裂多见, 免疫组织化学Vim、 α -抗胰蛋白酶、CD68阳性, 不表达上皮标志, 可与本例相鉴别。

由于本例肿瘤组织形态的特殊性, 诊断观点不尽相同, 临床医生将H E结果与免疫组织化学和分子检测结果相结合, 作出了最符合肿瘤本质的半描述性诊断: EIMS。综合分析, 其生物学行为属于良性至低度恶性, 采取手术完整切除治疗方案。

参考文献

1. Letcher CDM, Unni KK, Mertens F. World Health Organization classification of tumors. Pathology and genetics of tumor of soft tissue and bone[M]. Lyon: IARC Press, 2002: 48-106.
2. Fletcher CDM, Bridge JA, Hogendoorn PCW, et al. World Health Organization classification of tumors of soft tissue and bone[M]. 4th ed. Lyon, France: IARC Press, 2013: 83-84.
3. Coffin CM, Watterson J, Priest JR, et al. Extrapulmonary inflammatory myofibroblastic tumor (inflammatory pseudotumor). A clinicopathologic and immunohistochemical study of 84 cases[J]. *Am J Surg Pathol*, 1995, 19(8): 859-872.
4. Cook JR, Dehner LP, Collins MH, et al. Anaplastic lymphoma kinase (ALK) expression in the inflammatory myofibroblastic tumor: a comparative immunohistochemical study[J]. *Am J Surg Pathol*, 2001, 25: 1364-1371.
5. Mariño-Enríquez A, Wang WL, Roy A, et al. Epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma: An aggressive intra-abdominal variant of inflammatory myofibroblastic tumor with nuclear membrane or perinuclear ALK[J]. *Am J Surg Pathol*, 2011, 35(1): 135-144.
6. Kozu Y, Isaka M, Ohde Y, et al. Epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma arising in the pleural cavity[J]. *Gen Thorac Cardiovasc Surg*, 2014, 62(3): 191-194.
7. Yu L, Liu J, Lao IW, et al. Epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma: a clinicopathological, immunohistochemical and molecular cytogenetic analysis of five additional cases and review of the literature[J]. *Diagn Pathol*, 2016, 11(1): 67.
8. Haimes JD, Stewart CJR, Kudlow BA, et al. Uterine inflammatory myofibroblastic tumors frequently harbor ALK fusions with IGFBP5 and THBS1[J]. *Am J Surg Pathol*, 2017, 41(6): 773-780.
9. Rabban JT, Zaloudek CJ, Shekitka KM, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the uterus: a clinicopathologic study of 6 cases emphasizing distinction from aggressive mesenchymal tumors[J].

- Am J Surg Pathol, 2005, 29(10): 1348-1355.
10. 王秋鹏, 甘梅富, 张建伟, 等. 胃肠道炎性肌纤维母细胞瘤的临床病理学分析[J]. 中华病理学杂志, 2018, 47(10):758-762.
WANG Qiupeng, GAN Meifu, ZHANG Jianwei, et al. Gastrointestinal inflammatory myofibroblastic tumor: a clinicopathologic study[J]. Chinese Journal of Pathology, 2018, 47(10): 758-762.
 11. Shi H, Wei L, Sun L, Guo A. Primary gastric inflammatory myofibroblastic tumor: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 5 cases[J]. Pathol Res Pract, 2010, 206(5): 287-291.
 12. Deng S, Gao J. Inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell sarcoma: a rare presentation of a hepatic mass[J]. Int J Clin Exp Pathol, 2019, 12(8): 3149-3155.
 13. Horiguchi H, Matsui-Horiguchi M, Sakata H, et al. Inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell tumor of the spleen[J]. Pathol Int, 2004, 54(2): 124-131.
 14. Saito T. The SYT-SSX fusion protein and histological epithelial differentiation in synovial sarcoma: relationship with extracellular matrix remodeling[J]. Int J Clin Exp Pathol, 2013, 6(11): 2272-2279.
 15. Sasaki M, Araki I, Yasui T, et al. Primary localized malignant biphasic mesothelioma of the liver in a patient with asbestosis[J]. World J Gastroenterol, 2009, 15(5): 615-621.
 16. Haji Ali R, Khalife M, El Nounou G, et al. Giant primary malignant mesothelioma of the liver: A case report[J]. Int J Surg Case Rep, 2017, 30: 58-61.
 17. Enzenger FM, Weiss SW. Malignant fibrohistiocytic tumors//Weiss SW, Goldblum JR. Soft tissue tumors[M]. 4th ed. St Louis, Missouri: Mosby, 2001: 535-566.

本文引用: 程波, 丁姗姗, 郭静利, 许琳, 赵欢, 孙锁柱. 1例儿童肝罕见组织学形态上皮样炎性肌纤维母细胞肉瘤的临床病理分析[J]. 临床与病理杂志, 2021, 41(7): 1715-1722. doi: 10.3978/j.issn.2095-6959.2021.07.040

Cite this article as: CHENG Bo, DING Shanshan, GUO Jingli, XU Lin, ZHAO Huan, SUN Suozhu. Clinicopathologic analysis of a case of rare histopathologically morphologic epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma in the liver of children[J]. Journal of Clinical and Pathological Research, 2021, 41(7): 1715-1722. doi: 10.3978/j.issn.2095-6959.2021.07.040