

头颈部癌肉瘤 3 例

王建伟¹ 贾传亮¹ 张华¹ 宋西成¹

[关键词] 头颈部肿瘤;肉瘤;外科手术

doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2019.12.024

[中图分类号] R739.91 [文献标志码] D

Three cases of head and neck carcinosarcoma

Summary Head and neck carcinosarcoma leads to kinds of manifestations because of different original tumor sites, such as hoarseness and dyspnea in larynx, pharyngalgia and dysphagia in pharynx and compression in neck. Imaging examinations show specific occupying tumor sites and sometimes discover peripheral invasion. Pathological examination reveals both malignant squamous epithelium and interstitial tissue in these tumors, and therefore we diagnose these tumors as carcinosarcoma.

Key words head and neck neoplasms; sarcoma; surgical procedures, operative

1 病例报告

例 1,男,71 岁,因憋气 3 h 于 2018 年 3 月 12 日入院。患者入院前 3 h 出现憋气,呈吸气性呼吸困难,急诊气管切开缓解憋气症状。纤维喉镜示声门区尚光滑新生物,左侧披裂固定(图 1a);颈部增强 MR 见肿物强化不均匀(图 1b),结合 PET-CT 考虑恶性肿瘤;病理活检示喉鳞状细胞癌。结合术中病理给予扩大喉全切+双侧Ⅱ~Ⅴ区颈部淋巴结清扫+术后放疗(30 次,60 Gy/次)。术后病理符合癌肉瘤,呈中分化鳞状细胞癌。免疫组织化学:CK(部分+),Vim(部分+)。随访 9 个月无复发,现持续随访中。

例 2,男,58 岁,因左侧咽痛伴吞咽阻挡感 1 个月、加重 2 周于 2016 年 2 月 14 日入院。患者入院前 1 个月出现左侧咽痛,吞咽时加重,伴吞咽阻挡感,仅可进半流质饮食,入院前 2 周上述症状加重。纤维喉镜示左侧梨状窝类圆形尚光滑新生物(图 2a);颈部增强 MR 见肿物不均匀强化(图 2b);活检示下咽鳞状细胞癌。患者拒绝手术,评估后给予放疗(28 次,60 Gy/次)。18 个月后患者因“憋气”再次入院,急诊气管切开后完善检查,确诊为下咽部恶性肿瘤复发。颈部增强 CT 见肿瘤较前进一步增大,阻塞大部分气道(图 2c、2d),遂行咽腔肿瘤切除术。术后病理符合癌肉瘤,呈中分化鳞状细胞癌。免疫组织化学:肉瘤成分 Vim(+),CK(个别弱+)。考虑肿瘤为复发且进展较快,给予术后化疗(吉西他滨+多西他赛),化疗 4 个疗程后患者因出现全血细胞减少及电解质紊乱而死亡。

例 3,女,83 岁,因发现右侧颌下无痛肿物 2 个月于 2017 年 8 月 15 日入院。患者入院前 2 个月

发现右侧颈部类圆形肿物,5 cm×5 cm×5 cm 大小,伴右侧舌根部疼痛。颈部增强 CT 示肿物强化不均匀,且向上侵犯颌下腺及下颌骨骨质(图 3)。给予颈部肿瘤切除+右侧颈外动脉结扎+右侧Ⅱ~Ⅴ区颈部淋巴结清扫治疗,切缘阴性且受侵犯骨质于术中充分磨除。术后病理符合癌肉瘤,呈低分化鳞状细胞癌。免疫组织化学:CK(+),Vim(部分+)。术后 6 个月患者颈部再次出现肿物,考虑肿瘤复发,但患者因年纪较大拒绝进一步治疗,术后 12 个月死亡。

2 讨论

癌肉瘤同时包含恶性上皮及恶性间叶成分,是一种复合性高度恶性肿瘤^[1]。癌肉瘤也称为肉瘤样癌、梭形细胞癌或假性肉瘤^[2],对于其组织起源,相较之前的碰撞学说、假性肉瘤学说和肉瘤样癌学说,近年提出的全能干细胞单克隆起源学说相对更合理,但仍需深入研究^[3]。

癌肉瘤可发生于全身多种器官,头颈部相对罕见,目前对于头颈部癌肉瘤的认识多基于国内外散在的病例报道^[4-5]。王纾宜等(1999)报道喉癌肉瘤占喉部恶性肿瘤的 0.055%;杨美琴等(2003)汇总 1992—2012 年国内喉癌肉瘤的报道仅见 29 例。下咽部和颌下癌肉瘤的报道则更少见。有研究显示头颈部癌肉瘤好发于男性,烟酒史和放疗史可能是诱发因素,其临床表现与同部位鳞状细胞癌相似^[6-7]。本文例 1 和例 2 患者喉镜下肿瘤表现与鳞状细胞癌无明显差别,较难区分。影像学下癌肉瘤表现多为不均匀强化,虽可提示恶性,但仍无法与其他恶性肿瘤有效区分。头颈部癌肉瘤的确诊需依据术后的组织病理学检查,包括苏木精-伊红染色和免疫组织化学检查。癌肉瘤苏木精-伊红染色光学显微镜下可同时见上皮来源的癌组织和间叶来源的肉瘤组织;免疫组织化学主要表现为 Vim

¹ 青岛大学附属烟台毓璜顶医院耳鼻咽喉头颈外科(山东烟台,264000)
通信作者:宋西成, E-mail: songxicheng@126.com

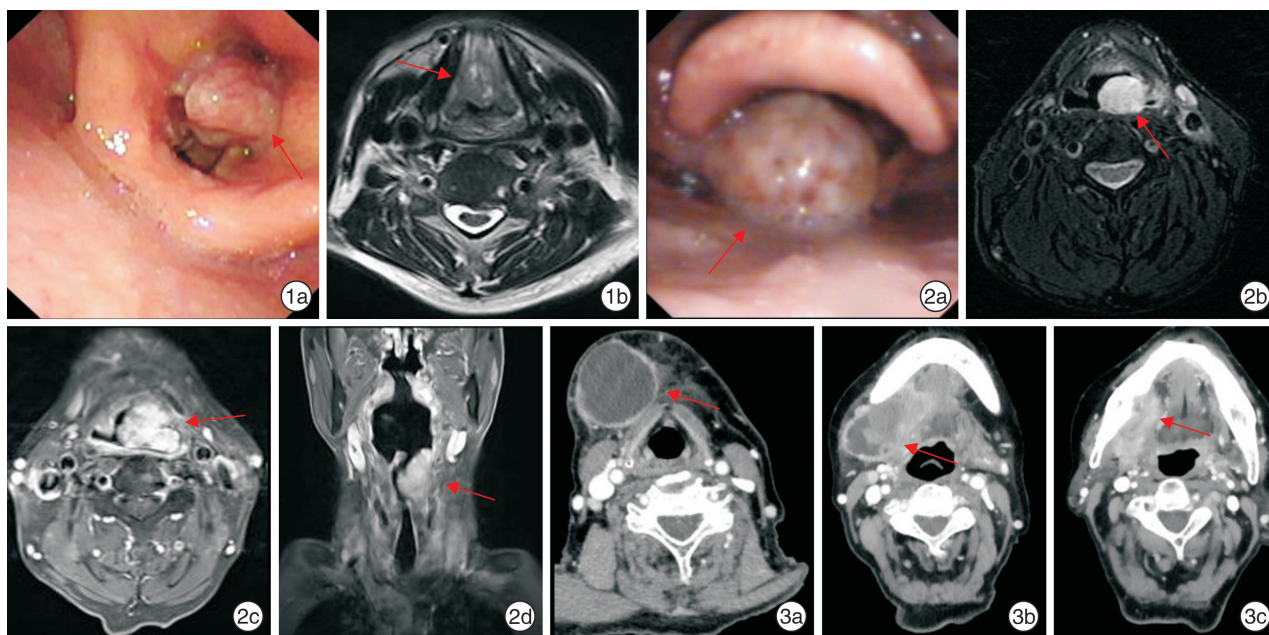


图 1 例 1 患者喉镜下及影像学所见 1a:声门区新生物表面尚光滑,双侧声带暴露不清;1b:肿物位于声门区,堵塞气道,呈不均匀强化; 图 2 例 2 患者喉镜下及影像学所见 2a:初诊时下咽部肿物,原发于杓会厌襞,表面见溃疡面,尚光滑,突入喉腔;2b:初诊时增强 MR 下见肿物不均匀强化;2c、2d:放疗后 18 个月肿瘤复发,下咽部见巨大肿物,挤压喉腔,阻塞大部分气道; 图 3 例 3 患者影像学所见 3a、3b、3c:右侧下颌下见巨大肿物,增强 CT 示不均匀强化,向上侵犯下颌骨骨质(红色箭头所示为肿瘤)。

和 CK 同时阳性,其中恶性上皮组织区 CK 阳性, Vim 阴性,而恶性间叶组织区 Vim 阳性,CK 阴性。对癌肉瘤的最后确诊需多次送检,尤其应将完整切除的肿瘤送检确诊,因病理活检或者术中快速病理一般仅能判定肿瘤良恶性,难以保证病理活检时取到的组织同时包含典型的恶性上皮和恶性间叶成分。本文中 3 例患者早期病理活检时均仅报告上皮的鳞状细胞癌,送检完整切除的肿瘤后才报告肉瘤样恶性病变。此外头颈部癌肉瘤进展迅速,且具有侵袭性。例 1 患者虽然喉镜下肿瘤主要位于声门区,但术中病理见第一气管环已受侵犯;例 3 患者肿瘤 2 个月内由 $5\text{ cm} \times 5\text{ cm} \times 5\text{ cm}$ 生长至 $7\text{ cm} \times 6\text{ cm} \times 6\text{ cm}$,且入院时已侵犯部分下颌骨骨质。

由于尚缺乏相应指南,头颈部癌肉瘤主要按照上皮源性恶性肿瘤的治疗思路以手术治疗为主,包括手术切除肿瘤及对应的颈部淋巴结清扫^[8]。虽然癌肉瘤进展迅速且侵袭性较强,术中宜根据肿瘤范围扩大安全边界切除,但病理活检时一般难以确诊癌肉瘤,仅能明确为恶性,所以要求手术时保证足够的安全边界,并术中及时送快速病理明确切缘性质,以防止癌灶残余或术后复发。若术中能确诊为癌肉瘤,可适当扩大安全边界进行切除^[9]。虽然肉瘤对放疗多不敏感,且化疗治疗癌肉瘤的效果也存在争议,但考虑到头颈部癌肉瘤中的上皮源性恶性组织多以鳞状细胞癌为主,为巩固预后,可于术后适当加以放化疗辅助。肿瘤的部位、大小、浸润

深度、肿瘤分期及有无转移及癌肉瘤中恶性上皮组织和恶性间叶组织的相应占比等可能是预后的影响因素。Ando 等^[10]还提出间叶上皮转化因子的表达可影响预后,但均需结合具体病例分析且有待更多研究进行详细阐释。

参考文献

- [1] ZHANG M, ZHAO L M, LI X M, et al. True carcinosarcoma of the larynx[J]. J Laryngol Otol, 2013, 127: 100—103.
- [2] THOMPSON L D, WIENEKE J A, MIETTINEN M, et al. Spindle cell(sarcomatoid)carcinomas of the larynx; a clinicopathologic study of 187 cases[J]. Am J Surg Pathol, 2002, 26: 153—170.
- [3] PARDO J, AISA G, DE ALAVA E, et al. Primary mixed squamous carcinoma and osteosarcoma (carcinosarcomas) of the lung have a CGH mapping similar to primitive squamous carcinomas and osteosarcomas[J]. Diagn Mol Pathol, 2008, 17: 151—158.
- [4] 刘柱, 李笑秋, 李克鹏, 等. 鼻部肉瘤样癌 9 例临床分析[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2018, 32(18): 1429—1431.
- [5] 张萌, 廖红明, 姜宪. 下咽部癌肉瘤 1 例[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2017, 31(21): 1695—1696.
- [6] HAIDAR Y M, ROSE M A. Radiation-induced carcinosarcoma of the submandibular gland: case report and review of literature[J]. B-ENT, 2016, 12: 339—343.
- [7] LEWIS J S Jr. Spindle cell lesions—neoplastic or non-neoplastic?: spindle cell carcinoma and other atypical spindle cell lesions of the head and neck[J]. Head

- Neck Pathol, 2008, 2: 103–110.
- [8] MINAMI S B, SHINDEN S, YAMASHITA T. Spindle cell carcinoma of the palatine tonsil: report of a diagnostic pitfall and literature review[J]. Am J Otolaryngol, 2008, 29: 123–125.
- [9] SUZUKI S, HANATA K, TOYOMA S, et al. Carcinosarcoma of the larynx consisting of squamous cell carcinoma and inflammatory myofibroblastic tumor components[J]. Auris Nasus Larynx, 2016, 43: 460–463.
- [10] ANDO M, SAITO Y, MORIKAWA T, et al. Maxillary carcinosarcoma: Identification of a novel MET mutation in both carcinomatous and sarcomatous components through next generation sequencing[J]. Head Neck, 2015, 37: E179–185.
- (收稿日期: 2018-10-09)

喉炎性肌纤维母细胞瘤癌变 1 例

王亚波¹ 石书靖¹ 乔振花¹ 张晓岚¹ 刘朝兵¹

[关键词] 喉肿瘤; 炎性肌纤维母细胞瘤; 喉显微外科手术

doi: 10.13201/j.issn.1001-1781.2019.12.025

[中图分类号] R739.65 [文献标志码] D

Canceration of inflammatory myofibroblastic tumor of the larynx: a case report

Summary Inflammatory myofibroblastic tumor (IMT) is a rare spindle neoplasm with malignant potentials of local invasion, recurrence and metastasis. Here, we present an extremely unusual case of the larynx IMT that was recurred three times and transformed into laryngeal squamous cell carcinoma.

Key words laryngeal neoplasms; inflammatory myofibroblastic tumor; laryngeal microsurgery

炎性肌纤维母细胞瘤 (inflammatory myofibroblastic tumor, IMT) 是较为少见的良性肿瘤, 有一定的局部侵袭性, 但较少复发、转移和癌变。IMT 主要发生于成年人的肺部, 也可见于泌尿生殖系统、胃肠道、乳腺、唾液腺和中枢神经系统, 在头颈部以鼻窦和眼眶较为常见, 发生于喉部者罕见^[1]。我院收治 1 例喉部 IMT 患者, 现报告如下。

1 病例报告

患者, 男, 73 岁, 主因声嘶 4 年、加重 1 个月于 2018 年 5 月 2 日以“喉肿物”入院。患者自 2014 年 7 月 10 日以来先后在我院及外院行显微镜支撑喉镜下左侧声带肿物切除术 2 次, 7 月 10 日电子喉镜 (图 1) 示: 左侧声带可见灰白色新生物, 表面欠光滑。术后病理 (图 2) 示: 左侧声带 IMT。免疫组织化学结果波形蛋白 (+)、结蛋白 (–)、CD34 (–)、Bcl-2 (–)、S-100 (–)、Ki67 (约 5%+)。体检: 一般情况可, 心、肺、腹未见明显异常。电子喉镜 (图 3): 左侧声带、前连合、右侧声带前端可见新生物, 表面欠光滑; 喉部增强 CT (图 4): 左侧声带可见结节状软组织密度占位影凸向气道, 向下移行累及气管左前壁, 边界清楚; 双侧会厌前间隙、会厌豁形态尚可, 喉部诸软骨未见异常, 扫描区域未见肿大淋巴结。结合患者病史及相关辅助检查考虑 IMT 复发, 因患者拒绝行开放性手术, 结合 CT 扫描未见

喉软骨破坏, 故于 2018 年 5 月 7 日全身麻醉下行显微镜支撑喉镜下 CO₂ 激光喉肿物切除术。术后病理 (图 5) 示: (左声带) 鳞状上皮异性增生伴灶性癌变, 故修正诊断为喉鳞状细胞癌 (声门型 T1N0M0)。患者于术后第 7 天行 ¹⁸F-FDG PET-CT 检查 (图 6~8): 左侧声带软组织影增厚, 可见轻度异常葡萄糖高代谢, 最大 SUV 值约为 3.6, 对侧声带最大 SUV 值为 2.4, 考虑左侧声带与术后水肿相关。术后第 10 天于综合医院行放射治疗, 随访至今未见复发, 目前仍在随访中。

2 讨论

IMT 是由肌纤维母细胞和混杂其中的炎性细胞所构成的交界性间质肿瘤, 其病因尚不明确, 有学者认为成人肺脏、脾脏和肝脏的 IMT 与人疱疹病毒-8 型和 EB 病毒感染相关^[2-3], 但迄今尚无 IMT 与病毒感染相关的报道。Idrees 等^[4]报道喉部 IMT 与 IgG4 相关, 此外, 创伤、用声过度、反流性食管炎及过度咳嗽也与喉部 IMT 相关。吸烟是导致该病发生的危险因素, 约有 22.6% 的喉部 IMT 患者有吸烟史^[5]。基因重排在肿瘤发生中也起着至关重要的作用, 2 号染色短臂 2 区 3 带基因重排使间变性淋巴瘤激酶 (although anaplastic lymphoma kinase, ALK) 位点发生变化^[6], 导致 ALK 激活, 进而刺激肿瘤细胞增殖, 大约 50% 的 IMT 患者 ALK 高表达^[7], 但 ALK 阴性患者常发生 ROS1、PDGFR-β 和 ETV6 融合^[8]。

¹ 河北省眼科医院耳鼻咽喉科 (河北邢台, 054000)
通信作者: 王亚波, E-mail: 1009529891@qq.com