



· 个案报道 ·

口腔肉瘤样癌1例

丁林¹, 袁杭², 赵晓慧¹, 关雪丹³, 姜燕慧¹, 刘宜敏¹, 毕卓菲¹

1. 中山大学孙逸仙纪念医院肿瘤放疗科, 广东 广州 510120 ;
2. 中山大学孙逸仙纪念医院病理科, 广东 广州 510120 ;
3. 中山大学孙逸仙纪念医院肝胆外科, 广东 广州 510120

[关键词] 头颈部; 肉瘤样癌; 放疗

DOI: 10.19401/j.cnki.1007-3639.2020.03.012

中图分类号: R739.8 文献标志码: A 文章编号: 1007-3639(2020)03-0237-04

Sarcomatoid carcinoma of oral cavity: a case report DING Lin¹, YUAN Hang², ZHAO Xiaohui¹, GUAN Xuedan³, JIANG Yanhui¹, LIU Yimin¹, BI Zhuofei¹ (1. Department of Radiation Oncology, Sun Yat-Sen Memorial Hospital of Sun Yat-Sen University, Guangzhou 510120, Guangdong Province, China; 2. Department of Pathology, Sun Yat-Sen Memorial Hospital of Sun Yat-Sen University, Guangzhou 510120, Guangdong Province, China; 3. Department of Hepatological Surgery, Sun Yat-Sen Memorial Hospital of Sun Yat-Sen University, Guangzhou 510120, Guangdong Province, China)

Correspondence to: BI Zhuofei E-mail: sumsjessie@163.com

[Key words] Head and neck; Sarcomatoid carcinoma; Radiotherapy

1 临床资料

患者, 女性, 50岁, 于2017年10月9日因“发现右下牙龈肿物1月余”就诊于中山大学孙逸仙纪念医院口腔科。患者在2017年9月拔牙后出现右侧下牙龈肿物, 且逐渐增大, 在进食后肿物会因为摩擦而出血。患者否认既往射线接触史、手术外伤史, 否认患其他疾病, 否认吸烟、酗酒、咀嚼槟榔病史。查体发现右下牙龈可见约5 cm×3 cm的红色肿块, 触之疼痛。颈部淋巴结未触及明显肿大。MRI显示, 右下牙龈肿块大小为46 mm×45 mm×36 mm, 与右下颌骨分界不清, 与周围软组织和舌界限清晰, 同时可见双侧多个小的颌下淋巴结(图1)。影像学的初步诊断为牙龈恶性病变。其他检查包括胸部X线和腹部超声结果均正常。患者接受了根治性肿瘤切除术和区域淋巴结清扫术。标本的组织病理学检查结果提示癌细胞表现为许多小而不规则的梭形细

胞混合少量鳞癌细胞, 癌细胞侵犯骨骼, 淋巴结阳性(1/8), 无淋巴脉管癌栓。免疫组织化学分析显示, 肿瘤细胞的P63、P40、vimentin和Cam5.2表达呈阳性, 细胞角蛋白(cytokeratin, CK)5/6和34βE12呈弱阳性表达, 肌动蛋白、结蛋白、S-100、CD34和上皮膜抗原(epithelial membrane antigen, EMA)表达呈阴性(图2)。根据病理学检查结果明确诊断为右下牙龈肉瘤样癌(T₄N₁M₀ IV A期)。因肿瘤侵犯骨骼、淋巴结阳性, 患者术后接受了4个周期由奈达铂(100 mg/m²)和紫杉醇(135 mg/m²)组成的辅助性化疗, 同时接受调强放疗(intensity-modulated radiation therapy, IMRT)。放疗的靶区由瘤床靶区(CTV1)和颈部淋巴结预防照射区域(CTV2)组成, 剂量分别为64 Gy/30 F和54 Gy/30 F(图3)。治疗期间患者出现Ⅳ度口腔黏膜炎和Ⅱ度骨髓抑制, 并发症均可耐受。随访至2019年6月患者已获得18个月的无病生存期。

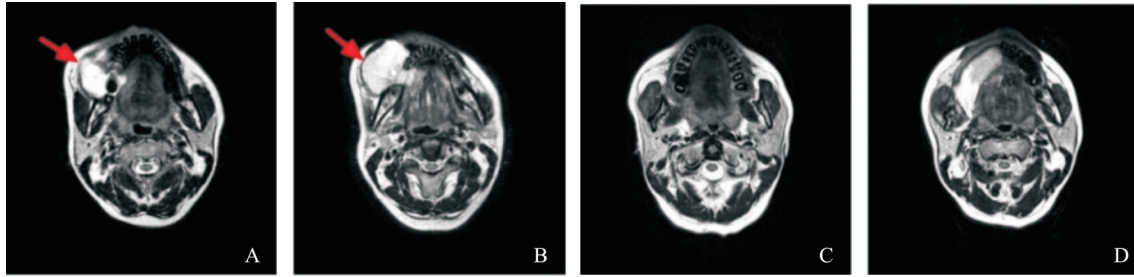


图1 口腔肉瘤样癌术前和术后的MRI检查

Fig. 1 MRI examination of the lesion before and after the operation

A, B: MRI examination (T2WI sequence) showed a tumor (red arrow) measuring 46 mm×45 mm×36 mm in size growing from gingiva and infiltrating right mandible. C, D: MRI examination (T2WI sequence) showed the tumor was dissected after the radical surgery

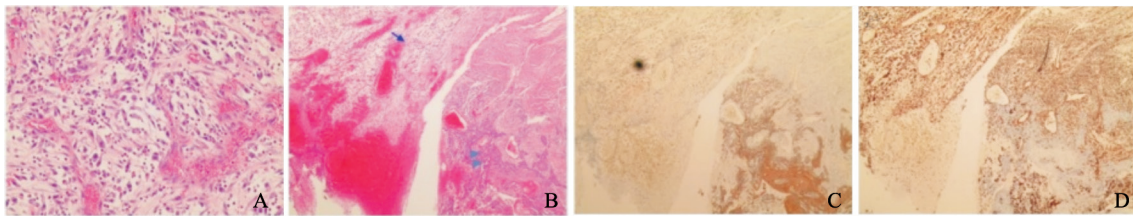


图2 显微镜下肉瘤样癌的免疫组织化学染色图像

Fig. 2 Microscopic immunohistochemical staining of sarcomatoid carcinoma

A: Sarcomatoid carcinoma was consisted of numerous small and irregular spindle carcinoma cells (hematoxylin and eosin stain; original magnification ×10). B: Sarcomatoid carcinoma cells (dark blue arrow) were mixed with a small proportion of poorly-differentiated squamous carcinoma cells (light blue triangles) (hematoxylin and eosin stain; original magnification ×2.5). C: The same view of (B) showed the strong staining for CK in the squamous carcinoma cells but light staining in the sarcomatoid carcinoma cells (CK stain; original magnification ×2.5). D: The same view showed the strong staining for vimentin in the sarcomatoid carcinoma cells but light staining in the squamous carcinoma cells (vimentin stain; original magnification ×2.5)

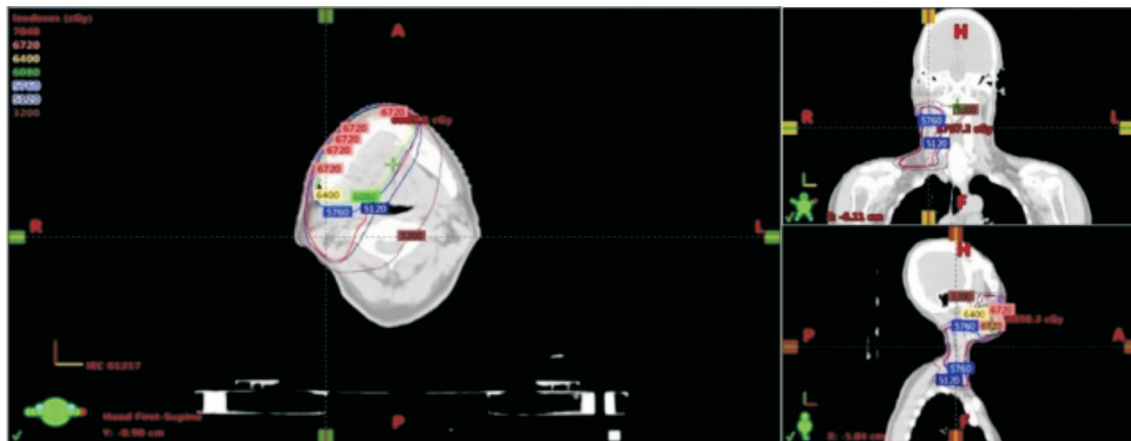


图3 口腔肉瘤样癌的放疗计划

Fig. 3 Radiotherapy plan for sarcomatoid carcinoma of the oral cavity

The radiation treatment plan shows isodose distribution on axial, coronal and sagittal views (A: Anterior; P: Posterior; R: Right; L: Left). CTV1 covers the surgical bed (6 400 cGy in 30 fractions, yellow isodose line). CTV2 covers the CTV1 plus 5 mm and ipsilateral elective neck nodes (5 400 cGy in 30 fractions, red isodose line)

2 讨 论

肉瘤样癌是一种罕见的肿瘤，许多学者认为与低分化鳞状癌细胞的演变密切相关，在许多器官和解剖位置中均

有报道。自1864年首次使用“肉瘤样癌”这一名词之后，实际上有多个名称被用以形容肉瘤样癌，如假性肉瘤、梭形细胞癌和癌肉瘤^[1-3]。曾经病理学家和临床医师都因这些相似的术语所带来的混乱而感到困扰。

2.1 病理学特征

在极端条件如射线照射下,鳞癌细胞会出现肉瘤样改变,这便是上皮-间质转化。在大多数情况下,肉瘤样癌保留了CK的表达,这证实了其肉瘤的区别^[4-5]。此外,有证据表明,P40和P63的同时表达能够帮助头颈部肉瘤样癌与肉瘤进行鉴别诊断,特别是当CK表达较弱时。这也是通过免疫组织化学仅仅检测CK的表达来确定上皮来源的肿瘤可能将某些肉瘤样癌误诊为假性肉瘤的原因^[6]。在本研究报道的病例中,组织学和免疫组织化学结果提示这是来自鳞癌细胞,呈现上皮和间质细胞的双相特征和肉瘤样化生的肿瘤。病理学诊断即为肉瘤样癌。

2.2 放疗在头颈部肉瘤样癌中的作用

头颈部肉瘤样癌较为罕见,其中除喉部肉瘤样癌以外其他部位更加罕见,因此研究较少,头颈部肉瘤样癌的标准治疗尚未达成一致^[7]。其中放疗的地位仍然存在争议^[8]。

既往认为放疗对肉瘤样癌无效^[9],直到1998年Ballo等^[10]才证实了放射线对肉瘤样癌的有效性。一项回顾性研究纳入了28例早期喉部肉瘤样癌患者,纳入的患者均完成了平均剂量为65 Gy的放疗,随访显示,T₁期和T₂期患者的5年无病生存率分别为94%和54%。提示早期喉部肉瘤样癌进行放疗后可以获得与同一分期的鳞癌类似的疾病控制率^[11]。有研究报道,口腔肉瘤样癌预后较其他头颈部肉瘤样癌预后更差^[12]。

最近学者普遍认为,对于头颈部肉瘤样癌而言,当手术切缘阳性或因患者存在手术禁忌不能手术时,应考虑放疗^[11]。Iqbal等^[8]报道了一项回顾性研究,纳入了15例头颈部肉瘤样癌的患者,其中7例诊断较为早期而仅接受手术治疗,2例患有早期病变的患者分别为喉部和下咽部肉瘤样癌,由于在显微镜下观察到阳性的手术切缘,因此进行了辅助放疗(65 Gy/30 F),喉部肉瘤样癌患者的无病生存期超过5年,而下咽部患者在确诊后的22个月出现复发,最后在3个月后死亡,其中2例患者诊断为IV期,1例患有鼻窦肉瘤样癌的患者接受了手术治疗,然后进行辅助放化疗(65 Gy/30 F,每周顺铂40 mg/m²),随访显示,无病生存期超过3年,另1例分期为T₄N_{2b}M₀的舌肉瘤样癌患者进行了手术后的辅助放疗(65 Gy/30 F),但在18个月出现复发,并且很快死亡,放疗方案均采用基于直线加速器的IMRT,该研究统计分析显示,患者的中位总生存期为18

个月,高于其他报道的结果。作者解释说研究中患者具有更好的预后可能归因于他们所采取的先进的手术方法和技术,以及对手术切缘不清楚或复发风险高的患者进行了积极的辅助治疗,包括化疗和放疗。因此,对于局部晚期、阳性或不确定手术切缘、淋巴结包膜外侵以及脉管或神经侵犯等高复发风险的病例,应考虑积极的辅助治疗。靶向突变基因的精准治疗在头颈部肉瘤样癌中也有散在的研究报道。Kim等^[13]报道了10例亚洲头颈部肉瘤样癌患者,2例患者携带有间变性淋巴瘤激酶(anaplastic lymphoma kinase, ALK)基因的重排,1例诊断为复发鼻窦肉瘤样癌患者接受了克唑替尼的治疗,该患者疼痛症状获得缓解,并得到了4个月的无病生存期。基于该研究的结果,另一项研究通过原位杂交或免疫组织化学技术检测了23例诊断为头颈部肉瘤样癌的高加索人患者的手术标本,却并未检测到包括ALK、MET或ROS基因在内的突变。因此需要更大样本量的研究来探索该肿瘤在不同人群中的基因突变情况,以指导临床的治疗^[14]。

[参 考 文 献]

- [1] H E M. The American Journal of Cancer [J]. Can Med Assoc J, 1931, 24(3): 439.
- [2] NATHAN L M D. Pseudosarcoma (polypoid sarcoma - like masses) associated with squamous - cell carcinoma of the mouth, fauces, and larynx; report of ten cases [J]. Cancer, 1957, 10(1): 19-47.
- [3] SHERWIN R P, STRONG M S, JR V C. Polypoid and junctional squamous cell carcinoma of the tongue and larynx with spindle cell carcinoma ("pseudosarcoma") [J]. Cancer, 1963, 16(1): 51-60.
- [4] BOLAND J M, MANSFIELD A S, RODEN A C. Pulmonary sarcomatoid carcinoma—a new hope [J]. Ann Oncol, 2017, 28(7): 1417-1418.
- [5] KIM J H, MOON W S, KANG M J, et al. Sarcomatoid carcinoma of the colon: a case report [J]. J Korean Med Sci, 2001, 16(5): 657-660.
- [6] TULUNAY O, KÜÇÜK B, YORULAZ I, et al. Sarcomatoid carcinoma of the larynx: immunohistochemical analysis in two cases [J]. Otolaryngol Head Neck Surg, 2006, 134(6): 1057-1059.
- [7] ONISHI H, KURIYAMA K, KOMIYAMA T, et al. T₁N₀ laryngeal sarcomatoid carcinoma that showed rapid systemic metastases after radical radiotherapy: a case report and review of literature [J]. Am J Otolaryngology, 2005, 26(6): 400-402.
- [8] IQBAL M S, PALERI V, BROWN J, et al. Spindle cell carcinoma of the head and neck region: treatment and outcomes

- of 15 patients [J]. *Ecancermedalscience*, 2015, 9(594): 1-9.
- [9] AMPIL F L. The controversial role of radiotherapy in spindle cell carcinoma (pseudosarcoma) of the head and neck [J]. *Radiat Med*, 1985, 3(4): 225-229.
- [10] BALLO M T, GARDEN A S, EL-NAGGAR A K, et al. Radiation therapy for early stage (T₁-T₂) sarcomatoid carcinoma of true vocal cords: outcomes and patterns of failure [J]. *Laryngoscope*, 1998, 108(5): 760-763.
- [11] SU H H, CHU S T, HOU Y Y, et al. Spindle cell carcinoma of the oral cavity and oropharynx: factors affecting outcome [J]. *J Chin Med Assoc*, 2006, 69(10): 478-483.
- [12] ELLIS G L, CORIO R L. Spindle cell carcinoma of the oral cavity. A clinicopathologic assessment of fifty-nine cases [J]. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 1980, 50(6): 523-533.
- [13] KIM S M, KIM M J, JUNG H A, et al. Presence of anaplastic lymphoma kinase translocation in sarcomatoid carcinoma of head and neck and treatment effect of crizotinib: a case series [J]. *Head Neck*, 2015, 37(5): E66-E69.
- [14] PERRONE F, BOSSI P, CORTELAZZI B, et al. Absence of ALK and MET alterations in head and neck sarcomatoid carcinoma [J]. *Oral Oncol*, 2016, 58: e4-e5.

(收稿日期: 2019-07-15 修回日期: 2019-10-24)

《中国癌症杂志》2020年征订启事

《中国癌症杂志》是由中华人民共和国教育部主管、复旦大学附属肿瘤医院主办的全国性肿瘤学术期刊,读者对象为从事肿瘤基础、临床防治研究的中高级工作者。主要报道内容:国内外研究前沿的快速报道、专家述评、肿瘤临床研究、基础研究、文献综述、学术讨论、临床病理讨论、病例报道、讲座和简讯等。《中国癌症杂志》已入选中文核心期刊、中国科技核心期刊及全国肿瘤类核心期刊,并为中国科技论文统计源期刊,先后被“中国期刊网”、“万方数据——数字化期刊群”和“解放军医学图书馆数据库(CMCC)”等收录。

《中国癌症杂志》为月刊,大16开,80页铜版纸(随文彩图),每月30日出版,单价15元,全年180元。国际标准连续出版物号1007-3639,国内统一连续出版物号CN 31-1727/R,邮发代号4-575,读者可在当地邮局订阅。

主 编: 沈镇宙

联系地址: 上海市东安路270号复旦大学附属肿瘤医院内

《中国癌症杂志》编辑部

邮 编: 200032

电 话: 021-64188274; 021-64175590-83574

网 址: www.china-oncology.com

电子邮箱: zgazzz@163.com

《中国癌症杂志》编辑部