

眶-鼻沟通性炎性假瘤恶性转归1例

齐智依, 皮啸环, 王兴华, 姜发纲*

华中科技大学同济医学院附属协和医院, 湖北 武汉

收稿日期: 2022年5月27日; 录用日期: 2022年6月7日; 发布日期: 2022年6月17日

摘要

眼眶与鼻窦由于解剖因素与生理基础的关系, 使炎症或肿瘤常相互波及形成沟通性占位; 眶鼻沟通性梭形细胞肿瘤性质的不断转化在临床上未见报道。炎性假瘤(inflammatory pseudotumor, IPT)、炎性肌纤维母细胞肿瘤(inflammatory myofibroblastic tumor, IMT)、梭形细胞肉瘤(spindle cell sarcoma, SCS)属于梭形细胞肿瘤(spindle cell tumors)中炎性反应性病变、侵袭性肿瘤、恶性梭形细胞肿瘤的一组异质性疾病。本文首次报道1例由IPT、转化为IMT, 最终转化为SCS的梭形细胞眶鼻沟通性病例。

关键词

梭形细胞肿瘤, 炎性假瘤, 炎性肌纤维母细胞肿瘤, 梭形细胞肉瘤

Malignant Outcome of Orbital-Nasal Communication Inflammatory Pseudotumor: A Case Report

Zhiyi Qi, Xiaohuan Pi, Xinghua Wang, Fagang Jiang*

Union Hospital Affiliated to Tongji Medical College of Huazhong University of Science and Technology, Wuhan Hubei

Received: May 27th, 2022; accepted: Jun. 7th, 2022; published: Jun. 17th, 2022

Abstract

Due to the relationship between anatomical factors and physiological basis, the orbital and paranasal sinuses often spread to each other to form communicating space occupying lesions; The continuous transformation of orbital nasal communicating spindle cell tumors has not been reported

*通讯作者。

in clinical practice. Inflammatory pseudotumor (IPT), inflammatory myofibroblastic tumor (IMT), and spindle cell sarcoma (SCS) are among the inflammatory reactive lesions, invasive tumors, a heterogeneous group of malignant spindle cell tumors. This article is the first to report a case of spindle cell orbitonasal communication from IPT, to IMT, and finally to SCS.

Keywords

Spindle Cell Tumor, Inflammatory Pseudotumor, Inflammatory Myofibroblastic Tumor, Spindle Cell Sarcoma

Copyright © 2022 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 背景

在眶鼻沟通性占位组织病理学报道中，IPT 是一种常见病理类型，由多形性炎症细胞反应和纤维血管组织反应引起的特发性肿瘤性炎症，是一种良性、非感染性、占位性、非肿瘤性的炎症状态。在一些病例中 IPT 出现肿瘤性特征，包括细胞遗传学异常和侵袭性临床行为，如局部侵袭、复发，甚至远处转移，病理特点是以纤维母细胞及肌纤维母增生为主，病理确定为 IMT；IMT 是一种具有惰性至恶性生物学潜能，其病理性质上偶见肿瘤消退或转化为恶性梭形细胞肿瘤，为一种生物学行为不确定的肿瘤；SCS 为一类具有高度恶性梭形细胞肿瘤特性，其在组织学上为梭形细胞肿瘤特征，临床上表现为恶性肿瘤的特征。

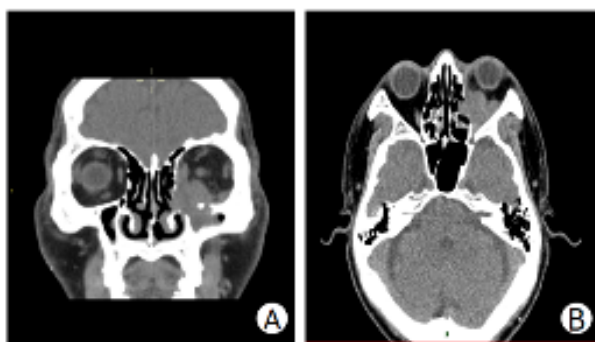
IPT、IMT、SCS 三者属于不同性质的梭形细胞肿瘤。本文报道一例罕见梭形细胞眶鼻沟通性占位，从临床诊断为 IPT，后病理明确为 IMT，并最终恶化为 SCS 的病理演变过程。

2. 病例资料

患者，男，62 岁，于 2019 年 05 月 23 日首次就诊于武汉协和医院眼科；述 19 天前体检发现左眼眶占位，伴眼红眼胀及眼痛等病史。右眼 0.8，最佳矫正视力 1.0。左眼 0.5，最佳矫正视力 0.8。左眼睑高度肿胀，结膜充血，左眼呈上斜位，向下运动受限。右眼未见明显异常。2019 年 05 月 24 日眼眶 CT (图 1(A)、图 1(B))提示左侧眶尖 - 上颌窦内团块影伴邻近骨质破坏。为明确疾病性质行手术治疗，术中见肿物蔓延至上颌窦，眼眶下壁受损，肿物弥散，呈白色、质硬，完整切除后送病检。术后病理结果(图 2(A)、图 2(B))提示(左眼眶)纤维组织增生伴大量淋巴细胞、浆细胞浸润及局灶淋巴滤泡形成。免疫组化染色示：CD3 及 CD20 示病变内 T 细胞 B 细胞混杂，CD21 及 D2-40 (FDC 网+)，PCK 及 SMA (增生的肌纤维母细胞+)，EMA (增生的浆细胞弱+)，Kappa 及 Lambda 示浆细胞为多克隆性增生，IgG (浆细胞+)，IgG4 阳性细胞数约 80 个/HPF，IgG4 阳性细胞数与 IgG 阳性细胞数之比约 25%；CD68 示组织细胞散在分布，Desmin、S100、ALK、CD30 及 CD123 无特殊所见。临床诊断：炎性假瘤。

2019 年 07 月患者左眼睑肿胀复发，于复旦大学附属眼耳鼻喉医院行“左鼻窦鼻腔肿物切除术 + 左全组鼻窦开放术”，临床诊断为炎性假瘤。2020 年 08 月开始出现左眼视力下降，伴眼痛、流脓，于 11 月 27 日就诊本院。专科查体：右眼 0.8，最佳矫正视力 1.0。左眼无光感，左眼睑肿胀下垂遮蔽眼球，见大量黄色分泌物，瞳孔固定，左眼球固定向前下方移位；右眼未见明显异常。2020 年 11 月 27 日眼眶 CT (图 3(A)、图 3(B))、眼眶 MRI (图 3(C)、图 3(D))提示左眼眶内壁、左侧筛窦及上颌窦窦壁缺如，呈术后

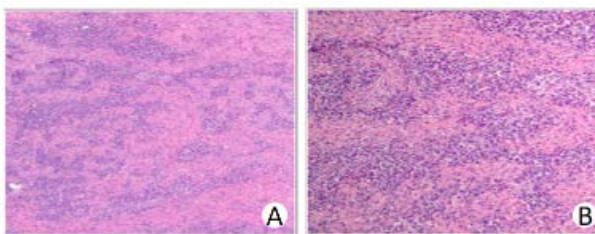
改变；左侧眼眶 - 上颌窦区 - 筛窦不规则稍低软组织密度影，2020 年 12 月 03 日全身糖代谢 PET-CT 提示(图 4(A)、图 4(B)、图 4(C)、图 4(D))左眼眶 - 上颌窦 - 筛窦区不规则软组织密度影，累及周围骨质；余探测部位未见明显恶性肿瘤病变及转移征象。2020 年 12 月 21 日本院行(左侧)鼻窦肿物切除术 + (面部)鼻侧切开术 + 鼻内镜下鼻腔鼻窦肿瘤(侵入眼眶及颅内)摘除术。术后病理结果(图 5(A)、图 5(B))：(左侧鼻腔鼻窦)梭形细胞肿瘤，符合炎性肌纤维母细胞肿瘤。免疫组化染色示瘤细胞：ALK (-)，SMA (-)，Desmin (-)，Calponin (部分+)，HHF35 (-)，h-caldesmon (部分+)，PCK (+)，EMA (-)，CK8/18 (-)，CK5/6 (-)，P40 (-)，P63 (少量弱+)，Cyclin D1 (部分+)，CD34 (-)，S100 (-)，SOX10 (-)，MyoD1 (-)，Myogenin (-)，P16 (-)，ERG (-)，CD21 (-)，CD35 (-)，INI1 (+)， β -Catenin (浆+)，NTRK (-)，Ki67 (LI: 20%)。



A、B：术前 CT 左侧眶尖见团块状软组织影，累计及鼻窦、侵及骨质。

Figure 1. Chest CT scans of this patient

图 1. 本例患者眼眶 CT 影像



A：左眼眶 - 鼻窦肿物(苏木精 - 伊红染色， $\times 40$)；B：左眼眶 - 鼻窦肿物(苏木精 - 伊红染色， $\times 100$)。

Figure 2. Histopathological and immunohistochemical examination of the tumor

图 2. 本例肿瘤组织病理学和免疫组化检测

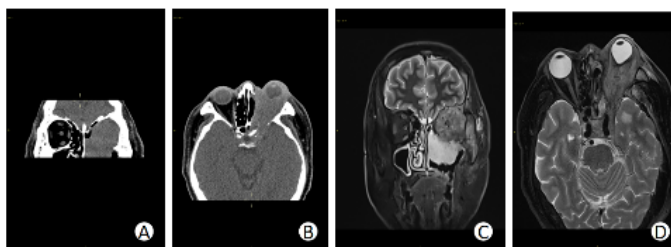


Figure 3. 27 November 2021 CT image and MRI of orbit in this patient

图 3. 2020 年 11 月 27 日本例患者眼眶 CT 影像、眼眶 MRI

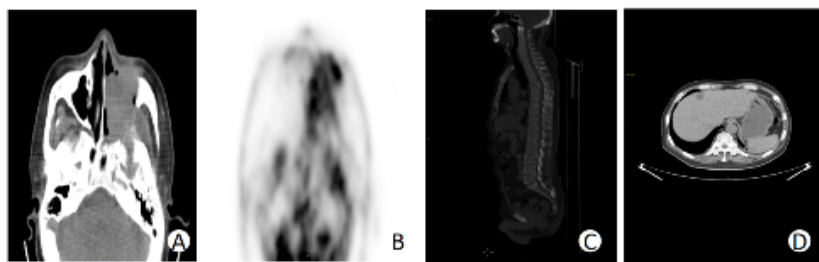
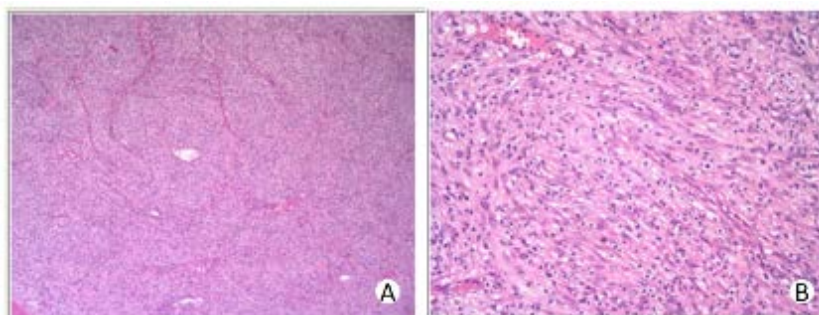


Figure 4. 3 December 2020 PET-CT of systemic glucose metabolism in this patient
图 4. 2020 年 12 月 03 日本例患者全身糖代谢 PET-CT



A: 左眼眶 - 鼻窦肿物(苏木精 - 伊红染色, $\times 40$); **B:** 左眼眶 - 鼻窦肿物(苏木精 - 伊红染色, $\times 100$)。

Figure 5. Histopathological and immunohistochemical examination of the tumor
图 5. 本例肿瘤组织病理学和免疫组化检测

2021 年 01 月 03 日转入本院肿瘤科治疗, 2021 年 01 月 05 日(图 6(A)、图 6(B)、图 6(C))鼻窦、肝脏、上腹部 CT 提示左眼、左鼻窦鼻腔术后改变、肝脏、脾脏内多发异常强化影、所及 Th5、L1 椎体压缩性骨折。治疗行吉西他滨 + 克艾力联合伯舒化疗。2021 年 05 月 14 日复查 CT、MRI 提示(图 7(A)、图 7(B)、图 7(C)、图 7(D)、图 7(F))双侧髌骨、坐骨、耻骨、骶骨、股骨头、下腰椎见广泛骨质破坏。活检术后病理结果(图 8 胸 5、腰 1)提示转移性梭形细胞肉瘤。免疫组化染色示瘤细胞: CD34 (-), CD117 (-)、Dog (-)、S-100 (+)、Desmin (-)、SOX-10 (-)、SMA (部分+)、STAT-6 (-)、CD99 (+)、PCK (+)、ALK (-)、P53 (+ 野生型)、Ki-67 (Li: 20%)、CK18 (-)、Vimentin (+)、P63 (-)、BCL-2 (+)、HCK (+)、TTF-1 (-)。病理诊断: 转移性梭形细胞肉瘤。



Figure 6. 5 January 2021 MRI of orbit, CT of liver, spleen and upper abdomen of the patient
图 6. 2021 年 01 月 05 日本例患者眼眶 MRI、肝脾脏、上腹部 CT



Figure 7. 4 May 2021 CT and MRI images of this patient

图 7. 2021 年 05 月 04 日本例患者 CT 影像、MRI 影像



Figure 8. Histopathology and immunohistochemistry of thoracic and lumbar vertebrae (HE staining, $\times 40$)

图 8. 本例胸、腰椎组织病理学和免疫组化检测(苏木精-伊红染色, $\times 40$)

3. 讨论

眼眶在解剖上与鼻腔、鼻窦有着密切的毗邻关系,眼眶壁的 2/3 以上与鼻窦仅以菲薄的骨壁相隔,其形成了眼、鼻腔、鼻窦疾病相互波及的解剖和生理因素;临床上眼眶的炎症及肿瘤常侵及鼻窦、鼻腔形成眶鼻沟通性占位,在眼眶肿瘤与鼻腔、鼻窦部肿瘤病理组织观察发现,眶鼻沟通性占位的常见病理分型:鳞状细胞癌、炎性假瘤、横纹肌肉瘤、淋巴瘤、腺癌、粘液囊肿、骨及软骨肿瘤等[1]。炎性假瘤在眶鼻沟通性占位中作为常见病理分型、作为梭形细胞肿瘤的良好病变。梭形细胞肿瘤是包含良性、侵袭性、恶性的一组疾病。本病例报道一例眶鼻沟通性占位中诊断为良性梭形细胞肿瘤(IPT)、侵袭性梭形细胞肿瘤(IMT)、最终转化为恶性梭形细胞肿瘤(SCS)。

3.1. IPT、IMT 的联系

IPT 定义为由多形性炎症细胞反应和纤维血管组织反应引起的一种良性、非感染性、占位性、非肿瘤性的炎症状态[2] [3]。病理组织组成成分复杂多变,主要由淋巴细胞、浆细胞和巨噬细胞的聚集以及成纤维细胞、肌成纤维性细胞的反应性增生[4]。近来,1990 年 Meis 和 Enzinger 首先报道在 IPT 一些病例中发现了 IMT 作为一种独特肿瘤实体,有其自身的病理、分子、临床学特征。病理组织以纤维母细胞及

肌纤维母增生为主,伴有淋巴细胞、浆细胞、嗜酸性粒细胞和组织细胞的炎性浸润,主要构成了梭形细胞型、粘液样型、纤维型三种病理组织类型[5] [6],在细胞遗传学上发现了 2p23 染色体短臂上克隆重排了酪氨酸激酶基因座中 *alk-1* 基因的位置 *alk* 基因,并与原肌球蛋白 3、原肌球蛋白 4、网格蛋白重链和 *ran* 结合蛋白 2 (*ranbp2*)等多种合作伙伴融合[7] [8]。临床行为上具有局部侵袭性、复发,远处转移的真正肿瘤;由于 IPT 病理与临床变现复杂多样以及在梭形细胞肿瘤分类中 IPT、IMT 作为炎性或良性反应性病变, IPT 与 IMT 很难做出明确的区分,在一些组织病变上 IPT 与 IMT 仍使用同义和互换的术语[9]。本案例最初病理组织表现为纤维组织增生伴大量淋巴细胞、浆细胞浸润及局灶淋巴滤泡形成,描述性病理报告为疾病早期病理变化,临床诊断为 IPT 几次复发后病理明确诊断为 IMT。临床案例报道 IMT 经保守治疗可出现自发性消退现象[10] [11] [12] [13]; 此类报道与本案例疾病进程表现出相反性及病理的转化。

3.2. IMT 诊断、预后

世界卫生组织 WHO 2020 年定义表明, IMT 是一种独特的、很少转移的肿瘤,由肌纤维母细胞和成纤维细胞梭形细胞组成,并伴有浆细胞、淋巴细胞和/或嗜酸性粒细胞的炎性浸润[6]; IMT 是在各个部位均可发病,最常发生在肺脏,腹部软组织、头颈部较常见[14] [15] [16]的中间生物学潜能的间充质梭形细胞肿瘤,其发病可能与感染(EB 病毒、单纯疱疹病毒)、创伤、手术和放射治疗有关[17] [18] [19]。影像学特征与 IPT 及其他恶性肿瘤之间缺少特异性甚至出现较高相似性,其临床表现具有罕见性与病理组织多样性,因此 IMT 的术前诊断具有极大挑战性,以病理学诊断为主。

目前 IMT 是炎症性还是肿瘤性仍存在争议,这种疾病临床案例报道也呈现良性与恶性两种不同转归。25 例眼眶 IMT 随访报道该疾病在类固醇激素或放射治疗没有转移及死亡,预后良好[20]; 1996 年一篇文献报道 IPT/IMT 经过五次复发临床病理转变为 SCS [21]。文献不断报道 IMT 的快速恶化、转化为上皮炎性肌成纤维细胞肉瘤(epithelial inflammatory myofibroblast sarcoma, EIMS)、低级别肌纤维母细胞肉瘤、化生癌、SCS [7] [22] [23] [24] [25]。

3.3. 探讨 IMT 转化为 SCS

IMT 作为肌纤维母细胞梭形细胞病变伴炎性浸润的异质性组,具有局部复发(15%~20%)、罕见转移特性的惰性至恶性生物学潜能性肿瘤。SCS 作为梭形细胞肿瘤中的高度恶性肿瘤、在病理组织上具有梭形细胞肿瘤特征临床上具有高度恶性肿瘤的特性。病理学中可知肌成纤维细胞与成纤维细胞、梭形细胞三者的关系为:肌成纤维细胞是经过修饰的具有收缩能力的成纤维细胞,肌成纤维细胞一般为梭形细胞,其形态变化可从圆形、星状、上皮样细胞到神经节样细胞不等,梭形细胞肿瘤涵盖了从反应性肿瘤样病变到高度恶性肿瘤的一组异质性疾病[26] [27] [28]。研究发现在 IMT 转化为 SCS 的病理变化中,相关炎症性细胞因子促使成纤维细胞转化为肌成纤维性细胞表达平滑肌肌动蛋白与成纤维因子[4] [29],其中 COX-2 炎症因子与肿瘤的侵袭性、癌症的发生发展呈现出相关性[30]。随着疾病复发,组织细胞密度、异型性出现相应的增加,甚至转化为肉瘤[21] [29]。在本病例中肿瘤免疫组化中呈现出高 Ki-67 (Li20%)、ALK (-)、p63、p53 的过表达。免疫组化研究表明 ALK 阴性被认为与高转移、复发相关[31] [32] [33]。高度异型性、神经节样细胞的存在、有丝分裂的增加、Ki-67 增殖指数升高、缺乏 ALK 反应性和致癌蛋白过度表达(如 p53 过度表达)与肿瘤的侵袭性生长、复发和恶性转化相关[34]。

3.4. 总结

在本案例中疾病眼眶 - 鼻窦沟通性病变,经过多次复发,病理性质出现不断转化;即梭形细胞病变 (IPT、IMT、SCS),为炎性/良性 - 交界性/侵袭性 - 恶性肿瘤。鉴于在本案例的发现及查阅相关案例报道,

临床治疗对于疾病复发并表现为侵袭性，临床治疗中应该给与扩大手术范围的根治治疗以及术前、术后放疗等积极治疗。对于局限性眼眶 IMT 伴或不伴复发这类疾病常呈现良好预后，在治疗上可给与肿瘤切除或药物保守治疗。然而由于这类疾病的罕见性，阻碍了确切的临床诊疗方案，需要不断总结临床经验。本案例为回顾性病例研究，不涉及其他侵犯个人隐私，已获得病人家属的知情同意。

参考文献

- [1] 储杨, 刘红刚. 眼眶沟通性肿瘤的临床病理学研究进展[J]. 临床与实验病理志, 2011, 27(10): 1114-1116.
- [2] Ronquillo, Y. and Patel, B.C. (2021) Nonspecific Orbital Inflammation. StatPearls Publishing, Treasure Island, FL.
- [3] Derakhshandeh, R., Dimopoulos, Y.P., Goodglick, T.A., et al. (2021) Single Institutional Experience on Orbital Inflammatory Pseudotumor: Diagnostic and Management Challenge. *Balkan Medical Journal*, **38**, 239-243. <https://doi.org/10.5152/balkanmedj.2021.21187>
- [4] Lai, L.M., McCarville, M.B., Kirby, P., et al. (2015) Shedding Light on Inflammatory Pseudotumor in Children: Spotlight on Inflammatory Myofibroblastic Tumor. *Pediatric Radiology*, **45**, 1738-1752. <https://doi.org/10.1007/s00247-015-3360-6>
- [5] 何春燕, 朴颖实, 田澄, 等. 头颈部炎性肌纤维母细胞瘤及炎性假瘤的临床病理特点[J]. 临床与实验病理学杂志, 2015, 31(12): 1356-1360.
- [6] WHO Classification of Tumours Editorial Board (2020) Soft Tissue and Bone Tumours. International Agency for Research on Cancer, Lyon. <https://publications.iarc.fr/Book-And-Report-Series/Who-Classification-Of-Tumours/Soft-Tissue-And-Bone-Tumours-2020>
- [7] Shukla, P.S. and Mittal, K. (2019) Inflammatory Myofibroblastic Tumor in Female Genital Tract. *Archives of Pathology & Laboratory Medicine*, **143**, 122-129. <https://doi.org/10.5858/arpa.2017-0575-RA>
- [8] Dermarkarian, C.R., Patel, K., Fuller, M., et al. (2020) Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Orbit in an 8-Month Old. *Ophthalmic Plastic & Reconstructive Surgery*, **36**, e65-e68. <https://doi.org/10.1097/IOP.0000000000001575>
- [9] Höhne, S., Milzsch, M., Adams, J., et al. (2015) Inflammatory Pseudotumor (IPT) and Inflammatory Myofibroblastic Tumor (IMT): A Representative Literature Review Occasioned by a Rare IMT of the Transverse Colon in a 9-Year-Old Child. *Tumori Journal*, **101**, 249-256. <https://doi.org/10.5301/tj.5000353>
- [10] Gómez-Román, J.J., et al. (2000) Presence of Human Herpesvirus-8 DNA Sequences and Overexpression of Human IL-6 and Cyclin D1 in Inflammatory Myofibroblastic Tumor (Inflammatory Pseudotumor). *Laboratory Investigation*, **80**, 1121-1126. <https://doi.org/10.1038/labinvest.3780118>
- [11] Arber, D.A., Kamel, O.W., van de Rijn, M., et al. (1995) Frequent Presence of the Epstein-Barr Virus in Inflammatory Pseudotumor. *Human Pathology*, **26**, 1093-1098. [https://doi.org/10.1016/0046-8177\(95\)90271-6](https://doi.org/10.1016/0046-8177(95)90271-6)
- [12] Lewis, J.T., Gaffney, R.L., Casey, M.B., et al. (2003) Inflammatory Pseudotumor of the Spleen Associated with a Clonal Epstein-Barr Virus Genome. Case Report and Review of the Literature. *American Journal of Clinical Pathology*, **120**, 56-61. <https://doi.org/10.1309/BUWNUMG5RV4D09YYH>
- [13] Vidrine, D.W., Berry, J.F., Garbuzov, A., et al. (2021) DCTN1-ALK Gene Fusion in Inflammatory Myofibroblastic Tumor (IMT) of the CNS. *Child's Nervous System*, **37**, 2147-2151. <https://doi.org/10.1007/s00381-021-05219-3>
- [14] Idrees, M.T., Huan, Y., Woo, P. and Wang, B.Y. (2007) Inflammatory Myofibroblastic Tumor of Larynx: A Benign Lesion with Variable Morphological Spectrum. *Annals of Diagnostic Pathology*, **11**, 433-439. <https://doi.org/10.1016/j.anndiagpath.2007.04.004>
- [15] Suzuki, S., Ohtani, M., Matsuo, Y., et al. (2021) A Forensic Autopsy Case: Sudden Unexpected Death Due to Cardiac Inflammatory Myofibroblastic Tumor. *Legal Medicine*, **53**, Article ID: 101931. <https://doi.org/10.1016/j.legalmed.2021.101931>
- [16] Montgomery, E.A., Shuster, D.D., Burkart, A.L., et al. (2006) Inflammatory Myofibroblastic Tumors of the Urinary Tract: A Clinicopathologic Study of 46 Cases, Including a Malignant Example Inflammatory Fibrosarcoma and a Subset Associated with High-Grade Urothelial Carcinoma. *The American Journal of Surgical Pathology*, **30**, 1502-1512. <https://doi.org/10.1097/01.pas.0000213280.35413.1b>
- [17] Habib, L., Son, J.H., Petris, C. and Kazim, M. (2017) Spontaneous Regression of Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Orbit: A Case Report and Review of Literature. *Orbit*, **36**, 178-182. <https://doi.org/10.1080/01676830.2017.1279645>
- [18] Matsubayashi, H., Uesaka, K., Sasaki, K., et al. (2019) A Pancreatic Inflammatory Myofibroblastic Tumor with Spon-

- taneous Remission: A Case Report with a Literature Review. *Diagnostics*, **9**, Article No. 150. <https://doi.org/10.3390/diagnostics9040150>
- [19] Calaway, A.C., *et al.* (2014) Spontaneous Resolution of Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Kidney. *The Canadian Journal of Urology*, **21**, 7582-7585.
- [20] Strianese, D., Tranfa, F., Finelli, M., *et al.* (2018) Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Orbit: A Clinico-Pathological Study of 25 Cases. *Saudi Journal of Ophthalmology*, **32**, 33-39. <https://doi.org/10.1016/j.sjopt.2018.04.001>
- [21] Donner, L.R., Trompler, R.A. and White, R.R. (1996) Progression of Inflammatory Myofibroblastic Tumor (Inflammatory Pseudotumor) or Soft Tissue into Sarcoma after Several Recurrences. *Human Pathology*, **27**, 1095-1098. [https://doi.org/10.1016/S0046-8177\(96\)90291-9](https://doi.org/10.1016/S0046-8177(96)90291-9)
- [22] Inamdar, A.A. and Pulinthanathu, R. (2019) Malignant Transformation of Inflammatory Myofibroblastic Tumor of Urinary Bladder: A Rare Case Scenario. *Bladder*, **6**, e39. <https://doi.org/10.14440/bladder.2019.805>
- [23] Zhao, J.J., Ling, J.Q., Fang, Y., *et al.* (2014) Intra-Abdominal Inflammatory Myofibroblastic Tumor: Spontaneous Regression. *World Journal of Gastroenterology*, **20**, 13625-13631. <https://doi.org/10.3748/wjg.v20.i37.13625>
- [24] Xing, P., Li, J., Jin, F., *et al.* (2014) Metaplastic Breast Carcinoma Development Following Surgical Resection of an Inflammatory Myofibroblastic Tumor in the Right Breast: A Case Report. *Oncology Letters*, **8**, 1345-1347. <https://doi.org/10.3892/ol.2014.2261>
- [25] Mariño-Enríquez, A., Wang, W.L., Roy, A., *et al.* (2011) Epithelioid Inflammatory Myofibroblastic Sarcoma: An Aggressive Intra-Abdominal Variant of Inflammatory Myofibroblastic Tumor with Nuclear Membrane or Perinuclear ALK. *The American Journal of Surgical Pathology*, **35**, 135-144. <https://doi.org/10.1097/PAS.0b013e318200cfd5>
- [26] Rath, R., Das, B.K., Das, S.N. and Baisakh, M.. (2014) Spindle Cell Carcinoma of Maxilla: Histomorphological and Immunohistochemical Analysis of a Case. *Journal of Oral and Maxillofacial Pathology*, **18**, 256-261. <https://doi.org/10.4103/0973-029X.140772>
- [27] Schwitzer, D., Kim, D., Williams, F. and Hammer, D. (2020) Spindle Cell Sarcoma of the Maxilla: A Rare Entity, Case Report, and Review of the Literature. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, **78**, 1334-1342. <https://doi.org/10.1016/j.joms.2020.02.003>
- [28] Magro, G. (2018) Differential Diagnosis of Benign Spindle Cell Lesions. *Surgical Pathology Clinics*, **11**, 91-121. <https://doi.org/10.1016/j.path.2017.09.005>
- [29] Fisher, C. (2011) Spindle Cell Sarcomas. *Surgical Pathology Clinics*, **4**, 721-744. <https://doi.org/10.1016/j.path.2011.08.002>
- [30] Zhang, Y., Peng, C., Tian, Z., *et al.* (2020) Inflammatory Myofibroblastic Tumor in the Head and Neck—A Neoplasm with Both Tumor Features and Inflammation. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology and Oral Radiology*, **130**, e316-e323. <https://doi.org/10.1016/j.oooo.2020.02.008>
- [31] Song, W. and Zhu, Y. (2021) Clinical Characteristics and Outcomes of 17 Cases of Inflammatory Myofibroblastic Tumor at a University Hospital in China. *Oncology Letters*, **21**, Article No. 51. <https://doi.org/10.3892/ol.2020.12312>
- [32] Sivesind, T.E., Anderson, A., Small, J.M. and Opperman, D. (2021) Inflammatory Myofibroblastic Tumor of the Larynx: Report of a Case. *Journal of Voice*, **2021**.
- [33] Munoz Moya, J.E., Aguirre, M.O.A., Silva, M.L., *et al.* (2019) Inflammatory Myofibroblastic Tumor: Variable Presentation of the Same Pathology. *Revista Chilena de Pediatría*, **90**, 328-335.
- [34] Bosse, K., Ott, C., Biegner, T., *et al.* (2014) 23-Year-Old Female with an Inflammatory Myofibroblastic Tumour of the Breast: A Case Report and a Review of the Literature. *Geburtshilfe und Frauenheilkunde*, **74**, 167-170. <https://doi.org/10.1055/s-0033-1360185>