

· 论著 ·

# 儿童胃肠道炎性肌纤维母细胞瘤的诊断与治疗



全文二维码

刘登辉 黎明 唐湘莲 黄召 向强兴 周宇翔 李勇

湖南省儿童医院普外科,长沙 410007

通信作者:李勇,Email:liyongpuwaike@163.com

**【摘要】 目的** 总结儿童胃肠道炎性肌纤维母细胞瘤(inflammatory myofibroblastic tumor,IMT)的临床特征及诊治经验。**方法** 回顾性分析湖南省儿童医院普外科 2010 年 1 月至 2021 年 12 月收治的 11 例胃肠道 IMT 患儿临床资料,男 7 例,女 4 例;发病年龄 8 个月至 15 岁,收集患儿临床特点、影像学检查、病理学诊断、外科治疗及随访情况等。**结果** 11 例主要以腹痛、呕吐、发热、血便及腹部肿物就诊。10 例行一期手术完整切除肿瘤,其中 1 例术后予化疗;1 例经活检确诊后未予手术,仅行化疗。11 例均病理诊断明确,均获随访(随访时间 6~60 个月),其中 9 例治愈,2 例带瘤生存(1 例于术后 2 年复发)。**结论** 儿童胃肠道 IMT 临床少见,手术是首选治疗方法。复发、难治性 IMT 的治疗亟待进一步积累经验。

**【关键词】** 肿瘤;肌组织;胃肠肿瘤;炎症;诊断;治疗;预后;儿童

**基金项目:**湖南省卫生健康委科研计划课题(202104081314);湖南省自然科学基金-面上项目(2023JJ30323)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202308019-015

## Diagnosis and treatment of inflammatory myofibroblastic tumor of gastrointestinal tract in children

Liu Denghui, Li Ming, Tang Xianglian, Huang Zhao, Xiang Qiangxing, Zhou Yuxiang, Li Yong

Department of General Surgery, Hunan Children's Hospital, Changsha 410007, China

Corresponding author: Li Yong, Email:liyongpuwaike@163.com

**【Abstract】 Objective** To summarize the clinical characteristics and treatment experience of gastrointestinal inflammatory myofibroblastic tumor (IMT) in children. **Methods** From January 2010 to December 2021, retrospective analysis was performed for the relevant clinical data of 11 children of abdominal gastrointestinal IMT. Clinical manifestations, radiographic features, pathological examinations, surgical approaches and follow-up results were recorded. And the related literatures of pediatric abdominal inflammatory myofibroblastic tumors were retrieved. **Results** There were 7 boys and 4 girls with a median onset age of 56 (8–180) months. The major symptoms were abdominal pain, vomiting, fever, bloody stool and abdominal lump. Total resection ( $n=10$ ) was performed and postoperative chemotherapy ( $n=1$ ) offered. And one child underwent biopsy plus postoperative chemotherapy. The follow-up period was (6–60) months until December 2022. Nine children were cured and 2 cases survived with tumors. One child recurred at 2 years post-operation. **Conclusions** The incidence of gastrointestinal IMT in children is rare. Surgery is a preferred option. Proper managements of recurrent and refractory IMT require extensive experiences and further researches.

**【Key words】** Neoplasms, Muscle Tissue; Gastrointestinal Neoplasms; Inflammation; Diagnosis; Therapy; Prognosis; Child

**Fund program:** Scientific Research Project of Hunan Provincial Health Commission (202104081314); General Project of Natural Science Foundation of Hunan Province (2023JJ30323)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202308019-015

炎性肌纤维母细胞瘤(inflammatory myofibroblastic tumor,IMT)是一种以肌成纤维细胞梭形细胞

增生、浆细胞和(或)淋巴细胞明显浸润为特征的间充质肿瘤<sup>[1]</sup>。常见于肺、腹膜、肠系膜以及头颈部等,病变累及胃肠道少见<sup>[2-3]</sup>。因其发病率低,影像学及临床表现缺乏特异性,常易误诊或延误诊断,或仅于急诊手术中被发现。部分 IMT 具有难治性、复发性和侵袭性特点<sup>[1,4]</sup>。本研究通过回顾性分析湖南省儿童医院普外科收治的 11 例胃肠道 IMT 患儿临床资料,结合文献总结该病的临床特征、诊断及治疗进展,以提高临床医师对该病的诊治能力。

## 资料与方法

### 一、研究对象

2010 年 1 月至 2021 年 12 月本院共收治胃肠道 IMT 患儿 11 例,其中男 7 例、女 4 例,发病年龄 8 个月至 15 岁,中位发病年龄 4 岁 8 个月。主要以腹痛、腹胀、呕吐、发热、血便及腹部肿物等症状就诊。本研究通过湖南省儿童医院医学伦理委员会审核批准(HCHLL-2023-164),患儿监护人均知情同意并签署知情同意书。

### 二、术前肿瘤标志物与影像学检查情况

11 例患儿神经元特异性烯醇化酶(neuron specific enolase, NSE)和甲胎蛋白(alpha-fetoprotein, AFP)等肿瘤标志物检查均无异常。CT 或 MRI 影像学检查显示病变涉及胃、十二指肠至直肠各段肠管,回盲部的 IMT 病灶弥漫性浸润明显,边界不清楚,且肠腔狭窄;合并肠套叠的 IMT 肠管呈层状、环状强化改变;结直肠的 IMT 为累及肠管内外的单发病灶,肠壁呈环形增厚,均匀强化明显。2 例电子结肠镜检查见肠腔内突出肿物(肿瘤基底直径 > 3 cm),肠镜下难以切除。炎性肌纤维母细胞瘤患儿影像学及肠镜检查典型照片见图 1。

### 三、观察指标

观察患儿治疗情况、治疗结局以及随访情况。随访时间为 6~60 个月,随访时间节点分别为术后

1 个月、3 个月、6 个月、1 年、2 年和 5 年,采用电话及门诊方式随访。随访时检查以腹部 B 超及 MRI 等为主,观察腹部伤口愈合情况,有无腹痛、呕吐、发热及有无肿瘤复发与转移等。免疫组化标志物检查指标包括间变性淋巴瘤激酶(anaplastic lymphoma kinase, ALK)、平滑肌肌动蛋白(smooth muscle actin, SMA)、S-100、波形蛋白(vimentin)、增殖细胞核抗原(Ki-67)、结蛋白(desmin)、CD34 以及 CK 蛋白。

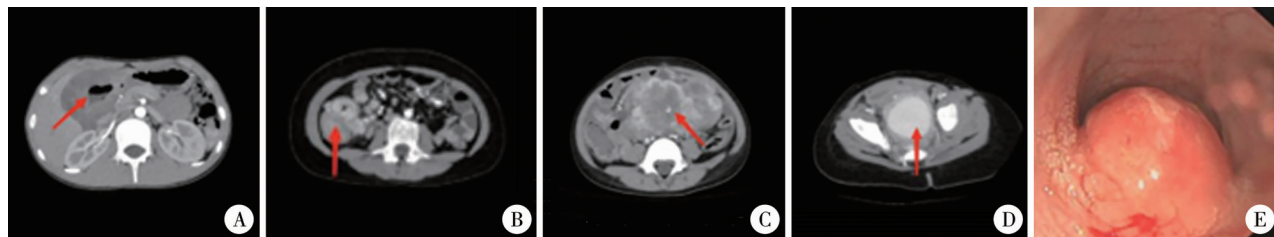
## 结果

11 例患儿中,10 例经一期手术完整切除肿瘤,其中 1 例术后予化疗;1 例经活检确诊后未手术仅予化疗。手术时间( $120 \pm 65$ )min,术中出血量( $65 \pm 17$ )mL,肿瘤重量( $203 \pm 45$ )g。11 例患儿性别、年龄、临床表现、肿瘤位置、治疗方式、复发或转移、随访时间及预后情况见表 1。

术后病理检查结果:大体标本见肿块呈椭圆或不规则分叶外观,切面呈灰白或灰黄色,外观呈囊状或束状纤维组织状;镜下见梭形细胞增生,呈编织状或席纹状,伴大量炎性细胞浸润,或玻璃样变或局灶出血。免疫组化标志物检查结果显示:ALK 阳性 8 例,SMA 阳性 5 例,vimentin 阳性 9 例,desmin 阳性 5 例。大体标本及部分病理检查结果见图 2;1 例直肠 IMT 患儿(病例 5)检测出 *TPM4-ALK* 融合,见图 3。

## 讨论

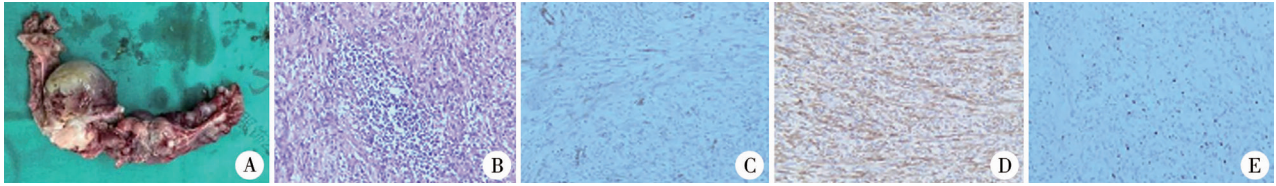
IMT 于 1939 年由 Brunn 等<sup>[2]</sup>首次报道,已被证实为一种真性肿瘤。2002 年世界卫生组织(World Health Organization, WHO)将 IMT 归类为中度恶性、少数可转移的肿瘤性病变,此后 IMT 被视为一种独立疾病<sup>[5]</sup>。研究发现,IMT 的发生与 2p23 染色体的 *ALK* 基因异位相关;也可由感染性疾病、异常修复、



注 A:胃、十二指肠连接部 IMT; B:回盲部 IMT; C:空肠-回肠交界部 IMT; D:直肠 IMT; E:肠镜下见直肠-乙状结肠交界部肠腔内肿物;IMT:炎性肌纤维母细胞瘤

图 1 炎性肌纤维母细胞瘤患儿 CT 平扫+增强及肠镜检查影像

Fig. 1 Imaging and colonoscopic images of IMT children



注 A:手术大体标本图; B:镜下见梭形细胞增生呈编织状或席纹状,伴有大量炎性细胞浸润(HE 染色, ×100); C:平滑肌肌动蛋白(局灶+)(HE 染色, ×100); D:间变性淋巴瘤激酶(+)(HE 染色, ×100); E:增殖细胞核抗原(5%)(HE 染色, ×100);IMT:炎性肌纤维母细胞瘤

图 2 1 例炎性肌纤维母细胞瘤患儿大体标本、病理及免疫组化结果  
Fig.2 Gross specimen and pathological immunohistochemistry of IMT children

表 1 11 例胃肠道炎性肌纤维母细胞瘤患儿临床特征、治疗方式及预后

Table 1 Clinical characteristics, treatment and prognosis of 11 children with abdominal gastrointestinal IMT								
病例序号	性别	起病年龄	临床表现	肿瘤位置	治疗方式	有无复发/转移	随访时间(月)	预后
1	男	15 岁	继发性肠套叠	回盲部	肠切除肠吻合术	无	9	存活
2	男	12 岁	腹痛、呕吐, 肠梗阻	胃十二指肠连接部增厚肠壁及肿大淋巴结	增厚肠壁及肿大淋巴结活检	后续外院治疗	31	带瘤生存
3	男	4 岁 8 个月	腹痛、呕吐, 肠梗阻	空回肠交界处肠管、大网膜及肠系膜	肿瘤切除、肠切除吻合、大网膜切除及肠系膜淋巴结清扫术	2 年后复发, 予再手术、放化疗等	30	带瘤生存
4	男	8 岁 10 个月	继发性肠套叠	回盲部	肠切除肠吻合术	无	48	存活
5	男	8 个月	血便、腹泻伴发热	直肠	经肛门直肠肿块切除 + 乙状结肠肛管吻合术	无	6	存活
6	男	1 岁 10 个月	腹痛、呕吐, 检查发现腹腔肿物	回盲部	肠切除肠吻合术	无	60	存活
7	女	10 岁 7 个月	腹痛, 检查发现腹腔肿物	回盲部	肠切除肠吻合术	无	60	存活
8	男	1 岁 5 个月	呕吐, 检查发现腹腔肿物	回盲部	肠切除肠吻合术	无	60	存活
9	女	14 岁 4 个月	肠梗阻	空肠回肠交界部肠管	肠切除肠吻合术	无	38	存活
10	女	3 岁 7 个月	肠梗阻	空肠回肠交界部肠管	肠切除肠吻合术	无	16	存活
11	女	2 岁 2 个月	健康体检发现腹腔肿物	直肠与乙状结肠交界部	肠切除肠吻合术	无	48	存活

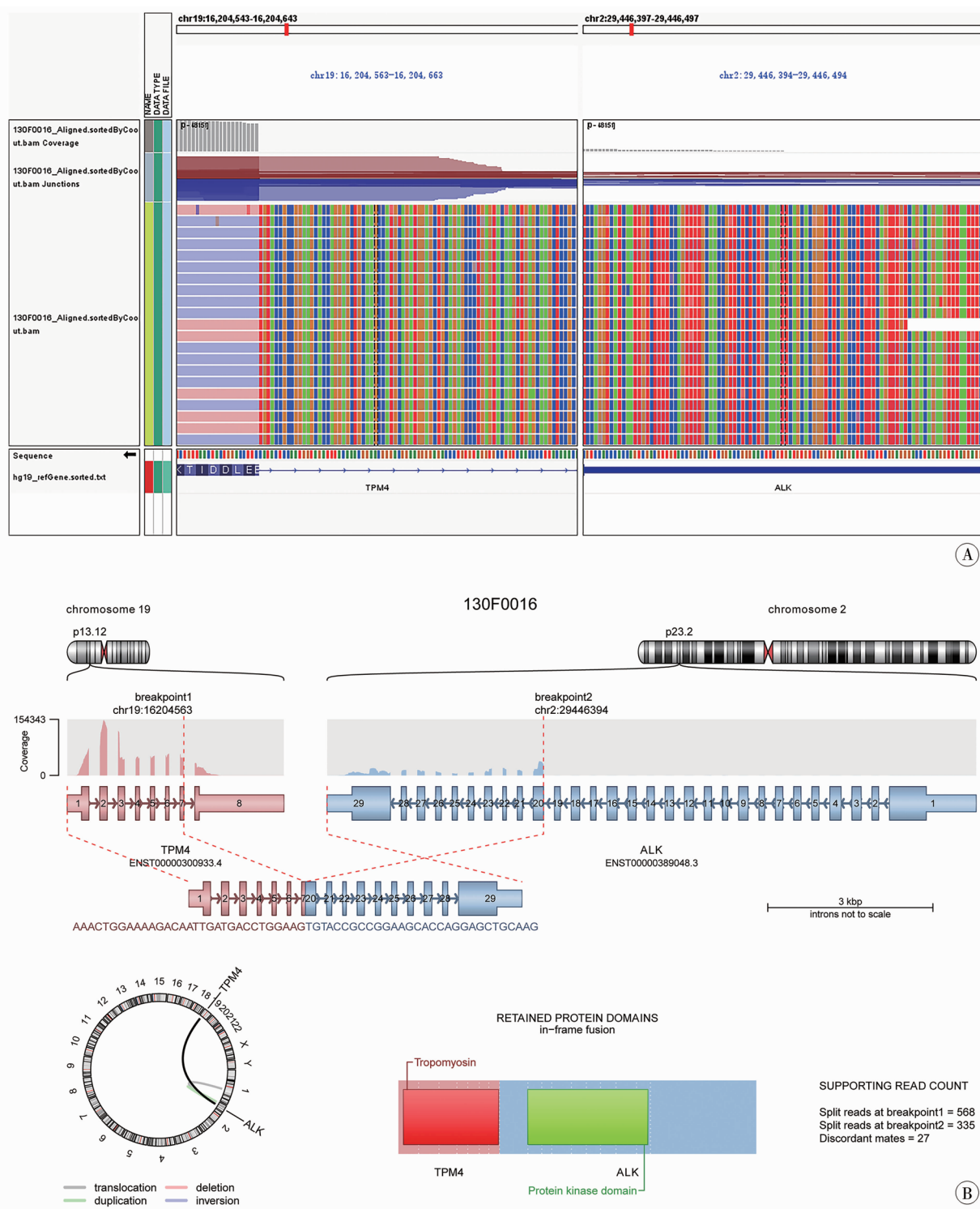
EB(Epstein-Barr,EB)病毒或特殊细菌感染、术后过度炎症反应、其他恶性肿瘤或自身免疫性疾病引起<sup>[6-7]</sup>。

IMT 的人群患病率为 0.04%~0.7%, 多见于儿童及青少年, 无明显性别差异。本研究纳入的 11 例中, 男 7 例、女 4 例, 发病年龄 8 个月至 15 岁, 中位发病年龄 4 岁 8 个月, 主要以腹痛、呕吐、发热、血便及腹部肿物就诊。患儿临床症状与肿瘤占位效应及炎症浸润密切相关, 并因解剖位置而异<sup>[2-3]</sup>。在胃肠道以回盲部及回肠末端多见。本组病例中, 胃十二指肠 IMT 患儿常表现为饱腹感、呕吐; 空回肠 IMT 患儿常以腹痛、腹胀或并发肠套叠、肠梗阻就诊; 结直肠部 IMT 常表现为下腹疼痛、腹胀以及腹泻、大便带血等。此外, 胃肠道 IMT 还可出现消瘦、

发热、贫血等全身症状<sup>[4,8]</sup>。

约 20% 的 IMT 患儿实验室检查发现白细胞、C 反应蛋白、血沉等炎症指标升高<sup>[9-10]</sup>。虽然 IMT 患儿彩超及影像学检查结果无特异性, 但仍然是十分必要的辅助检查<sup>[11]</sup>。本研究中, 回盲部 IMT 患儿 CT 检查提示病灶弥漫性浸润明显, 病灶边界不清楚, 肠腔狭窄; 发生肠套叠的 IMT 患儿 CT 检查见管壁呈层状、环状不均匀强化改变; 结肠、直肠 IMT 检查提示累及肠管内外单发病灶, 肠壁呈环形增厚, 不均匀强化。因此在研判影像学等辅助检查结果时, 如发现边界不清楚、不均匀强化及有明显侵犯邻近组织的软组织肿块, 结合临床表现及实验室检查等, 需考虑到 IMT 可能, 但最终诊断仍依赖于病理检查结果<sup>[12]</sup>。





注 A: *TPM4-ALK* 融合基因 IGV 截图; B: *TPM4-ALK* 融合基因示意图; IGV: 综合性基因组学可视化工具

图 3 1 例直肠炎性纤维母细胞瘤 *TPM4-ALK* 融合基因 IGV 截图及 *TPM4-ALK* 融合基因示意图

Fig. 3 *TPM4-ALK* Schematic diagram of fusion genes; *TPM4-ALK* Screenshot of IGV fusion gene

病理检查是确诊 IMT 的金标准,其主要特征性改变为梭形肌纤维母细胞伴炎症细胞浸润,间质水肿黏液变<sup>[4]</sup>;病理组织中发现有肌样细胞间质、巨噬细胞和神经节样细胞、肿瘤脉管侵犯以及切缘浸润的 IMT 常提示预后不良<sup>[13-14]</sup>。免疫组化常出现

ALK、Vimentin、Dsemin、SMA 阳性。上皮样炎性肌纤维母细胞肉瘤 (epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma, eIMS) IMT 的一个罕见病理亚型,临床表现为高度侵袭性生物学行为和高复发致死率。1 例 IMT 患儿复发可能与 Ki-67、ALK 活性存在相关



性,该患儿 Ki-67 增值指数为 25%、ALK(3+),为本组中最高水平。但本研究样本量较小,Ki-67、ALK(3+)是否与 IMT 复发及预后相关,还需要多中心大样本量研究进一步验证。Chan 等<sup>[15]</sup>纳入 61 例 IMT 患儿并进行长达 10 年的随访,发现 IMT 中 ALK(+)常提示预后良好;但 Coffin 等<sup>[16]</sup>认为 ALK(+)与 IMT 局部复发有关。也有研究发现远处转移的患儿 ALK(-),认为 ALK(-)的患儿更容易发生远处转移<sup>[17]</sup>。

目前普遍认为 IMT 的发生与 2p23 染色体 ALK 基因易位有关,易位致使 ALK 与不同基因融合,从而形成致癌融合基因<sup>[6]</sup>。目前已知的 RANBP2-ALK 突变型 eIMS 肿瘤呈上皮样形态,侵袭性较强,预后差<sup>[18]</sup>。ALK 常见的融合基因有 NPM1、KIF5B、TPM3、TPM4、CLTC、CARS、RANBP2、AT1C 等<sup>[19]</sup>;ROS1、RET、NTRK1/3 和 IGFIR 基因重排在 IMT 中亦有报道<sup>[19]</sup>。不同部位 IMT 肿瘤基因突变类型和融合基因不同:在腹部 IMTs 中 RANBP2 和 CLTC 基因的 ALK 融合发生率明显高于其他脏器;肺 IMT 的 ROS1 重排更具特征性;NTRK3 和 PDGFR $\beta$  融合仅在胸椎 IMT 中检测到<sup>[20]</sup>。采用荧光原位杂交检测(fluorescence in situ hybridization, FISH)以及二代基因测序(next generation sequencing, NGS)新技术检测有无 ALK 重排及融合基因,对于判断 IMT 患儿预后、有无肿瘤复发转移等尤为重要。本组病例使用 ALK 分离探针,2 例检出 ALK 基因重排,但并未接受靶向免疫治疗。因此,对于有条件的患者、诊断有争议的病例、复发性 IMT 以及考虑为 eIMS 者建议进一步行 NGS 检测。

儿童 IMT 多为良性病变,少数具有恶性潜能。手术完整切除是影响 IMT 预后的独立危险因素,放化疗在部分病例中初见成效<sup>[17,21]</sup>。难以手术完整切除、多发转移的 IMT 及 eIMS 患儿可考虑新辅助化疗、术后放化疗及腹腔热灌注化疗(hyperthermic intraperitoneal chemotherapy, HIPEC)等治疗<sup>[17]</sup>。2020 年欧洲儿童软组织肉瘤学会组(European pediatric Soft Tissue Sarcoma Study Group, EpSSG)指出:对于无法切除的肿瘤,化疗仍然是一种有效的选择,总体有效率可达 64%<sup>[22]</sup>。目前化疗方案采取 EpSSG 推荐的以蒽环类/异环磷酰胺为基础,或甲氨蝶呤和长春瑞滨/长春碱为基础的化疗方案<sup>[22]</sup>。前期研究中也有关于抗感染或激素治疗有效的报道,但在停止用药后出现疾病进展<sup>[23]</sup>。2010 年 ALK 抑制剂克唑替尼治疗 IMT 的效果得到认可,其在 IMT 患

儿中的安全性与疗效也被证实,但有研究人员发现 ALK 耐药性突变、克唑替尼治疗失败的病例<sup>[24-26]</sup>。虽然目前尚无关于耐药患者二线和挽救治疗的共识,但有研究发现第二代 ALK 抑制剂色瑞替尼对挽救克唑替尼治疗失败或耐药的 IMT 患儿有效,甚至有完全缓解的个案报道<sup>[25,27]</sup>。在 2/3 的 ALK 阴性、伴转移和(或)复发的 IMT 中可检测到 PD-L 表达,有研究认为针对 PD-L 的靶点治疗可能对上述 IMT 患者有效<sup>[28]</sup>。也有报道 ALK 抑制剂和维布妥昔单抗(一种单克隆 CD30 抗体)联合靶向治疗 eIMS 患者的生存期显著提高,但目前国际上仍未就 IMT 的最优治疗方案达成共识<sup>[29]</sup>。

综上所述,IMT 是一类罕见间叶源性肿瘤,手术是 IMT 的主要治疗手段,目前临床已证实 ALK 抑制剂和新辅助化疗等对 IMT 患儿有效,但其对复发难治性 IMT 患儿的疗效还需通过更多前瞻性研究进行评估(尤其是耐药性 IMT 的挽救治疗方案);免疫靶向药物治疗手段为 IMT 提供了许多新思路,但仍面临诸多挑战。

**利益冲突** 所有作者声明不存在利益冲突

**作者贡献声明** 刘登辉、黄召负责文献检索;刘登辉、黎明负责论文设计;唐湘莲、向强兴负责数据收集与分析;刘登辉、周宇翔负责论文结果撰写和讨论分析;李勇负责对文章知识性内容进行审阅

## 参 考 文 献

- [1] Gros L, Dei Tos AP, Jones RL, et al. Inflammatory myofibroblastic tumour: state of the art [J]. Cancers (Basel), 2022, 14 (15): 3662. DOI: 10.3390/cancers14153662.
- [2] Brunn H. Two interesting benign lung tumors of contradictory histopathology: remarks on the necessity for maintaining the chest tumor registry [J]. J Thorac Surg, 1939, 9 (2): 119-131. DOI: 10.1016/S0096-5588(20)32030-4.
- [3] Surabhi VR, Chua S, Patel RP, et al. Inflammatory myofibroblastic tumors: current update [J]. Radiol Clin North Am, 2016, 54 (3): 553-563. DOI: 10.1016/j.rcl.2015.12.005.
- [4] 陈欣媛, 李智. 儿童炎性肌纤维母细胞瘤诊治进展 [J]. 临床小儿外科杂志, 2023, 22 (3): 296-300. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202204073-018.  
Chen XY, Li Z. Updates in diagnosis and treatment of inflammatory myofibroblastic tumor in children [J]. J Clin Ped Sur, 2023, 22 (3): 296-300. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202204073-018.
- [5] Jo VY, Fletcher CDM. WHO classification of soft tissue tumours: an update based on the 2013 (4th) edition [J]. Pathology, 2014, 46 (2): 95-104. DOI: 10.1097/PAT.000000000000050.
- [6] Li YP, Han WW, He LJ, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor after treatment of Wilms tumor in a 6-year-old boy: a case report and literature review [J]. Urology, 2021, 149: e25-e28. DOI: 10.1016/j.urology.2020.11.012.
- [7] Dong YH, Zahid KR, Han YD, et al. Treatment of pediatric in-

- flammatory myofibroblastic tumor; the experience from China Children's Medical Center[J]. *Children (Basel)*, 2022, 9(3): 307. DOI:10.3390/children9030307.
- [8] Sbaraglia M, Bellan E, Dei Tos AP. The 2020 WHO classification of soft tissue tumours: news and perspectives[J]. *Pathologica*, 2021, 113(2): 70-84. DOI:10.32074/1591-951X-213.
- [9] Anderson WJ, Doyle LA. Updates from the 2020 World Health Organization classification of soft tissue and bone tumours[J]. *Histopathology*, 2021, 78(5): 644-657. DOI: 10.1111/his.14265.
- [10] 胡嘉健, 黄一晋, 韩建宇, 等. 小儿腹部炎性肌纤维母细胞瘤诊治探讨[J]. *临床小儿外科杂志*, 2020, 19(4): 336-341. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.04.011.
- Hu JJ, Huang YJ, Han JY, et al. Abdominal inflammatory myofibroblastic tumors in children: a clinical diagnosis and treatment review[J]. *J Clin Ped Sur*, 2020, 19(4): 336-341. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2020.04.011.
- [11] Torres US, Matsumoto C, Maia DR, et al. Computed tomography and magnetic resonance imaging findings of inflammatory pseudotumors in the abdomen and pelvis: current concepts and pictorial review[J]. *Semin Ultrasound CT MR*, 2018, 39(2): 220-229. DOI:10.1053/j.sult.2017.09.005.
- [12] Liu B, Xu JL, Wang JX, et al. Computed tomography appearance of inflammatory myofibroblastic tumor in the abdomen: CT features and pathologic correlation[J]. *Int J Clin Exp Med*, 2015, 8(9): 16745-16755.
- [13] Bennett JA, Nardi V, Rouzbahman M, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the uterus: a clinicopathological, immunohistochemical, and molecular analysis of 13 cases highlighting their broad morphologic spectrum[J]. *Mod Pathol*, 2017, 30(10): 1489-1503. DOI:10.1038/modpathol.2017.69.
- [14] Devereaux KA, Fitzpatrick MB, Hartinger S, et al. Pregnancy-associated inflammatory myofibroblastic tumors of the uterus are clinically distinct and highly enriched for TIMP3-ALK and THBS1-ALK fusions[J]. *Am J Surg Pathol*, 2020, 44(7): 970-981. DOI:10.1097/PAS.0000000000001481.
- [15] Chan JK, Cheuk W, Shimizu M. Anaplastic lymphoma kinase expression in inflammatory pseudotumors[J]. *Am J Surg Pathol*, 2001, 25(6): 761-768. DOI: 10.1097/00000478-200106000-00007.
- [16] Coffin CM, Hornick JL, Fletcher CDM. Inflammatory myofibroblastic tumor; comparison of clinicopathologic, histologic, and immunohistochemical features including ALK expression in atypical and aggressive cases[J]. *Am J Surg Pathol*, 2007, 31(4): 509-520. DOI:10.1097/01.pas.0000213393.57322.c7.
- [17] Nakano K. Inflammatory myofibroblastic tumors: recent progress and future of targeted therapy[J]. *Jpn J Clin Oncol*, 2023, 53(10): 885-892. DOI:10.1093/jjco/hyad074.
- [18] Zhu Y, Ding Y, Song GX, et al. Clinicopathological features of inflammatory myofibroblastic tumor[J]. *Chin J Pathol*, 2021, 50(3): 194-200. DOI: 10.3760/cma.j.cn112151-20200806-00627.
- [19] Siemion K, Reszec-Gielazyn J, Kislik J, et al. What do we know about inflammatory myofibroblastic tumors? -A systematic review[J]. *Adv Med Sci*, 2022, 67(1): 129-138. DOI:10.1016/j.advmms.2022.02.002.
- [20] Preobrazhenskaya EV, Suleymanova AM, Bizin IV, et al. Spectrum of kinase gene rearrangements in a large series of paediatric inflammatory myofibroblastic tumours[J]. *Histopathology*, 2023, 83(1): 109-115. DOI:10.1111/his.14912.
- [21] Biswas R, Halder A, Gangopadhyay M, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of maxillary sinus successfully treated with radiotherapy and corticosteroid; report of a rare case[J]. *J Egypt Natl Canc Inst*, 2020, 32(1): 26. DOI:10.1186/s43046-020-00038-0.
- [22] Casanova M, Brennan B, Alaggio R, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor: The experience of the European pediatric Soft Tissue Sarcoma Study Group (EpSSG)[J]. *Eur J Cancer*, 2020, 127: 123-129. DOI:10.1016/j.ejca.2019.12.021.
- [23] Panigada S, Sacco O, Giosi D, et al. Corticosteroids may favor proliferation of thoracic inflammatory myofibroblastic tumors[J]. *Pediatr Pulmonol*, 2014, 49(3): E109-E111. DOI: 10.1002/ppul.22977.
- [24] Butrynski JE, D'Adamo DR, Hornick JL, et al. Crizotinib in ALK-rearranged inflammatory myofibroblastic tumor[J]. *N Engl J Med*, 2010, 363(18): 1727-1733. DOI:10.1056/NEJMoa1007056.
- [25] Trahair T, Gifford AJ, Fordham A, et al. Crizotinib and surgery for long-term disease control in children and adolescents with ALK-positive inflammatory myofibroblastic tumors[J]. *JCO Precis Oncol*, 2019, 3: 1-11. DOI:10.1200/PO.18.00297.
- [26] Mansfield AS, Murphy SJ, Harris FR, et al. Chromoplectic TPM3-ALK rearrangement in a patient with inflammatory myofibroblastic tumor who responded to ceritinib after progression on crizotinib[J]. *Ann Oncol*, 2016, 27(11): 2111-2117. DOI:10.1093/annonc/mdw405.
- [27] Mittal A, Gupta A, Rastogi S, et al. Near-complete response to low-dose ceritinib in recurrent infantile inflammatory myofibroblastic tumour[J]. *Ecancermedicinescience*, 2021, 15: 1215. DOI:10.3332/ecancer.2021.1215.
- [28] Cottrell TR, Duong AT, Gocke CD, et al. PD-L1 expression in inflammatory myofibroblastic tumors[J]. *Mod Pathol*, 2018, 31(7): 1155-1163. DOI:10.1038/s41379-018-0034-6.
- [29] Fordham AM, Xie JH, Gifford AJ, et al. CD30 and ALK combination therapy has high therapeutic potency in RANBP2-ALK-rearranged epithelioid inflammatory myofibroblastic sarcoma[J]. *Br J Cancer*, 2020, 123(7): 1101-1113. DOI:10.1038/s41416-020-0996-2.

(收稿日期:2023-08-16)

**本文引用格式:** 刘登辉, 黎明, 唐湘莲, 等. 儿童胃肠道炎性肌纤维母细胞瘤的诊断与治疗[J]. *临床小儿外科杂志*, 2024, 23(2): 178-183. DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202308019-015.

**Citing this article as:** Liu DH, Li M, Tang XL, et al. Diagnosis and treatment of inflammatory myofibroblastic tumor of gastrointestinal tract in children[J]. *J Clin Ped Sur*, 2024, 23(2): 178-183. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202308019-015.