

[文章编号]1672-3244(2014)06-0543-06

·临床总结·

Clinical Reports

口腔颌面部腺泡状软组织肉瘤 18 例临床分析

王宏伟,秦兴军*,杨雯君,徐立群,季彤,张陈平*

(上海交通大学医学院附属第九人民医院·口腔医学院 口腔颌面-头颈肿瘤科,
上海市口腔医学重点实验室,上海 200011)

[摘要] 目的:总结口腔颌面部腺泡状软组织肉瘤的临床表现、诊断、治疗及预后特点。方法:收集 1995 年 1 月—2013 年 12 月就诊于上海交通大学医学院附属第九人民医院口腔颌面—头颈肿瘤科的 18 例腺泡状软组织肉瘤患者的临床资料,包括患者的性别、年龄、肿瘤大小、原发部位、有无远处转移、确诊方式、治疗及预后等,并对患者的资料进行回顾分析。结果:18 例患者中,女 10 例、男 8 例;平均发病年龄 20.2 岁(3~61 岁);肿瘤平均直径 4 cm(1.5~6.5 cm);原发部位包括:舌(10 例)、颊(5 例)、口咽(1 例)、上前牙龈(1 例)、下前牙龈(1 例),其中 1 例发病初期即有肺转移,1 例术后 46 个月发现肺转移。所有患者均经病理明确诊断,均以病灶扩大切除为主要治疗手段,术后放疗 3 例,辅助性化疗 1 例。患者平均随访 33 个月(6~75 个月),末次随访时,1 例早期肺转移患者带瘤生存 19 个月,1 例复发伴多处肺转移患者死亡,其余均无复发、转移。结论:口腔颌面部腺泡状软组织肉瘤的临床表现具有其自身特点;确诊依据免疫组织化学及 PAS 染色;治疗以病灶扩大切除为主,多数病例在病灶彻底切除后能够获得较好的预后。

[关键词] 腺泡状软组织肉瘤;口腔颌面部;临床特点

[中图分类号] R739.8

[文献标志码] A

Alveolar soft part sarcoma of the oral and maxillofacial region: clinical analysis of 18 patients WANG Hong-wei, QIN Xing-jun, YANG Wen-jun, XU Li-qun, JI Tong, ZHANG Chen-ping. (*Department of Oromaxillofacial Head and Neck Oncology, Ninth People's Hospital, College of Stomatology, Shanghai Jiao Tong University School of Medicine, Shanghai Key Laboratory of Stomatology, Shanghai 200011, China*)

[Abstract] PURPOSE: To summarize the clinical features, diagnosis, treatment strategies and prognosis of alveolar soft part sarcoma (ASPS) of oral and maxillofacial region. **METHODS:** We performed a retrospective study in a consecutive series of 18 patients with ASPS in the oral and maxillofacial region between 1995 and 2013. Demographics, tumor sizes, sites, metastasis and diagnosis of disease, treatments provided, and follow-up outcomes were documented and analyzed. **RESULTS:** Eighteen patients (10 females, 8 males; mean age of 20.2 years, range, 3-61 years) who were diagnosed pathologically had their primary tumor in the tongue (10), cheek (5), pharynx (1), gingival (2), with an average size of 4 cm (range, 1.5-6.5 cm). Two patients exhibited pulmonary metastases. Extensive resections were performed in all patients. Postoperative radiotherapy was delivered in 3 cases, and adjuvant systemic chemotherapy was given to 1 case. Mean follow-up periods were 33 months (range, 6-75 months). At the latest follow-up, one patient with lung metastases survived for 19 months, and one died 3 months after confirmation of local recurrence and multiple pulmonary metastases, the other patients remained in good health and were disease-free. **CONCLUSIONS:** ASPS of the oral and maxillofacial region has unique clinical characteristics. The immunohistochemical findings and PAS-positive results help to make the final diagnosis. The most commonly advocated and effective treatment for ASPS of oral and maxillofacial region remains to be radical surgical excision of the lesions.

[Key words] Alveolar soft part sarcoma; Oral and maxillofacial region; Clinical features

China J Oral Maxillofac Surg, 2014, 12(6):543-548

[收稿日期] 2014-04-25; [修回日期] 2014-08-07

[作者简介] 王宏伟(1988-),女,在读硕士研究生,

E-mail:xnngo-go@163.com

[通信作者] 秦兴军, E-mail: qinxj1989@sina.com;

张陈平, E-mail: chenping_zhang2009@163.com。* 共同通信作者

©2014 年版权归《中国口腔颌面外科杂志》编辑部所有

腺泡状软组织肉瘤 (alveolar soft part sarcoma, ASPS) 是一类罕见的、组织学来源尚不十分明确的软组织恶性肿瘤, 1952 年由 Christopherson 等^[1]首次报道。该肿瘤好发于 15~35 岁的青少年和中青年, 占全部软组织肉瘤的 0.5%~1%, 最常见于四肢和躯干, 头颈部少见, 其在头颈部肉瘤中所占比例不足 0.1%^[2-7]。有文献报道^[8-10], 原发于头颈部的 ASPS 主要发生于眶 (48%) 和舌 (25%), 眶部的 ASPS 多发于成年人, 而舌部的 ASPS 多见于儿童及青少年。本文对 19 年间就诊于我科的 18 例 ASPS 患者的临床资料进行回顾分析, 旨在总结口腔颌面部 ASPS 的临床表现、诊断、治疗和预后, 为临床工作提供帮助。

1 病例与方法

1.1 一般资料

收集 1995 年 1 月—2013 年 12 月就诊于上海交通大学医学院附属第九人民医院口腔颌面—头颈肿瘤科的 18 例 ASPS 患者的临床资料。其中 12 例为初发, 6 例为外院术后复发来诊, 女 10 例, 男 8 例, 年龄 3~61 岁 (平均 20.2 岁)。发病部位: 舌 10 例 (舌根 5 例, 舌及口底 4 例, 舌背 1 例)、颊部 5 例、口咽部 1 例、上前牙龈 1 例、下前牙龈 1 例。病灶表现为膨胀性生长的类球形肿物, 部分表面可呈结节状, 被覆黏膜和 (或) 皮肤颜色多正常, 位于颊部者黏膜可出现黄白色改变, 肿物表面通常无破溃, 触诊质地偏软, 界限尚可, 硬度差 (图 1、2)。CT 图像上可见病灶外周对比增强以及中央液化、坏死, 部分患者 MRI 的 T1 和 T2 加权上可见病灶内的流空信号 (图 3)。病灶组织 H-E 染色, 低倍镜下可见富含血管的结缔组织条带将多角形的肿瘤细胞分隔成典型的腺泡样结构; 高倍镜下肿瘤细胞呈多形性, 胞质内富含嗜酸



图 1. 舌根 ASPS。表现为左侧舌根部的结节样肿物
Figure 1. ASPS of the tongue base. Nodular mass on the left tongue base was noted



图 2. 颊部 ASPS。表现为累及颊黏膜的多结节样肿物
Figure 2. ASPS of the cheek. A large mass with multiple nodules was adhered to the buccal mucosa

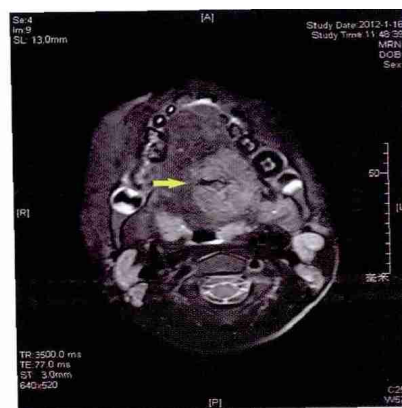


图 3. 磁共振图像 (MRI) 可见病灶呈高信号, 中央液化、坏死, 异构对比度增强, T1 和 T2 加权上可见病灶内的流空信号
Figure 3. Magnetic resonance images (MRI) showed a hyperintense lesion with central necrosis and heterogeneous contrast enhancement along with flow voids within the lesion on T1 and T2 weighted images

性颗粒, 多孔样细胞核偏心性排列, 内含空泡状染色质, 核仁明显, 核异型性较小; 肿瘤细胞 PAS 染色均呈阳性 (图 4)。肿瘤大小 (长径) 1.5~6.5 cm (平均 4 cm), 患者病程 1~36 个月 (平均 7.4 个月), 有自发痛或触压痛者 13 例, 病变侵犯颌骨者 2 例。18 例患者均无颈淋巴结转移; 1 例发病早期即发现肺转移; 1 例术后 20 个月复发, 术后 46 个月发现肺多灶性转移 (图 5)。所有患者经免疫组织化学及 PAS 染色后明确病理诊断。

1.2 治疗

12 例患者于我院行原发灶扩大切除, 切除范围在肿瘤边界外 1.0~1.5 cm, 术中冷冻切片检查切缘均为阴性; 6 例患者于外院行肿瘤切除, 切除范围不详, 术中切缘未送冷冻切片检查, 复发后来我院就诊。本组病例术后复发共 7 例, 其中 6 例再次行病灶外 1.5~2.0 cm 扩大切除, 术中冷冻切片检查切缘阴性。因缺损较大或严重影响口腔颌面功能, 4 例行邻

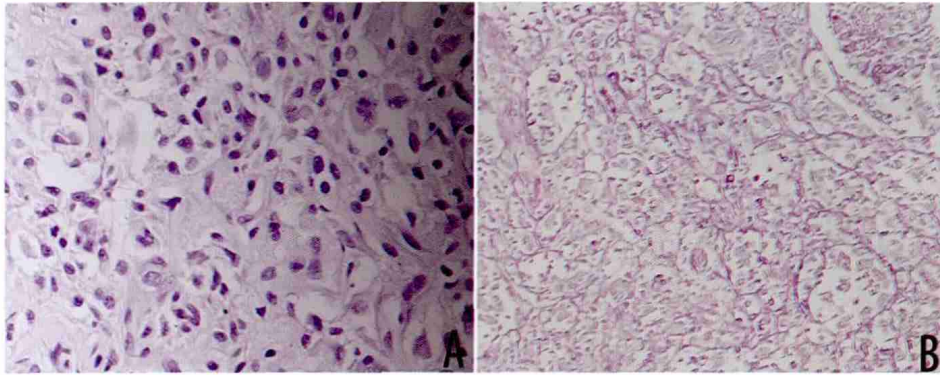


图 4. 肿瘤组织病理图像。A. 高倍镜下, 肿瘤细胞呈圆形或多角形, 部分细胞胞体大, 多边形, 胞质内可见多数空泡以及少量的嗜酸性胞质, 核空泡状, 圆形至椭圆形, 呈偏心性分布, 边界清楚, 核仁显著; 部分细胞体积较小, 核深染; 核分裂象少见(H-E, ×400); B. 肿瘤细胞 PAS 染色 (+), 肿瘤细胞被富含薄壁小血管的纤维组织分隔排列成典型的假腺泡样结构 (PAS, ×100)

Figure 4. Histopathological images of the tumor. A. High power: The tumor cells exhibited pleomorphism. Some large cells were round or polygonal, showed abundant eosinophilic or translucent cytoplasm with 1 or 2 vesicular and eccentric nuclei. Nuclei were round to oval, with distinct border and prominent nucleoli. Some cells were small with evident nucleoli. Mitotic activity was scant (H-E, ×400); B. Periodic acid-Schiff staining was positive. The tumor was composed of alveolar like structures that were separated by thin, well-vascularized fibrous septa (PAS, ×100)

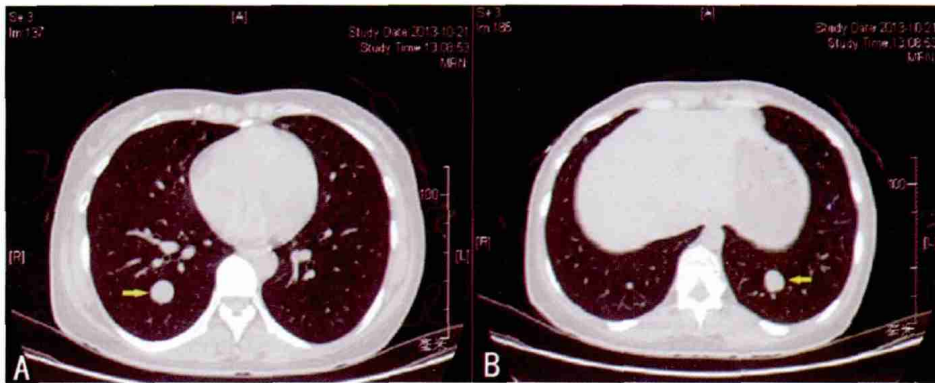


图 5. 下牙龈 ASPS 患者术后 46 个月, CT 显示肺部多发转移灶

Figure 5. Computed tomography (CT) at 46-month postoperatively revealed bilateral pulmonary metastases in patient with ASPS of lower gingiva

近瓣转移修复, 2 例同期行前臂游离皮瓣修复, 1 例行股前外侧游离皮瓣修复。因术中冷冻不能确诊, 8 例一期行病灶同侧选择性颈淋巴清扫术, 淋巴结术后均病理阴性。

术后放疗 3 例: 1 例因早期肺转移, 原发灶扩大切除术后行肺部转移灶放疗; 1 例因原发灶与复发病灶直径均 >5 cm, 复发病灶扩大切除后补充放疗; 1 例则因早期被误诊为脉管畸形, DSA+无水乙醇注射 3 次后瘤体无缩小, 肿瘤渐大至直径 6 cm, 同时病程延长至 1 年, 原发灶扩大切除后补充放疗。放疗剂量 50~65 Gy。辅助性化疗患者 1 例: 该患者因年龄小, 且复发病灶范围较大, 故应用环磷酰胺 650 mg, 650 mg, 400 mg 化疗 3 次, 肿瘤缩小 30% 后行扩大切除。

2 结果

本组 18 例患者术后复发 7 例, 复发时间在术后 2~20 个月之间, 平均复发时间为术后 12 个月。6 例复发患者行复发灶扩大切除, 术后继续随访。迄今为止, 4 例患者因术后时间超过 15 a, 已失访(末次随访时间为术后 5 a, 且末次随访时均无复发、转移); 其余 14 例随访时间 6~75 个月, 且近期末次随访 13 例患者仍存活, 其中 1 例因确诊时即发现肺转移, 肺部放疗后带瘤生存 19 个月; 1 例患者在术后 20 个月时发现局部复发并于术后 46 个月发现肺部多发转移, 姑息治疗 3 个月后死亡; 其余 12 例无复发、转移(表 1)。

表 1. 18 例口腔颌面部 ASPS 患者的临床资料

Table 1. Data of 18 patients with ASPS of oral and maxillofacial region

序号	性别	年龄(岁)	直径大小 (cm)	部位	疼痛	转移	治疗	术后复发(月)	随访时间(月)	末次随访状态
1	女	20	2.5	右舌根	自发痛	无	扩大切除	15	32	N
2	女	3	3.5	舌根	无	无	扩大切除+邻近瓣	无	8	N
3	女	24	1.8	右颊	无	无	病灶扩大切除	无	12	N
4	男	11	3	舌背	压痛	无	扩大切除	2	12	N
5	女	14	5	右舌、口底	压痛	无	扩大切除;扩大切除+左前臂游离皮瓣+放疗	5	13	N
6	女	28	6	左舌、口底	压痛	肺	扩大切除+邻近瓣+转移灶放疗	无	19	肺转移带瘤生存
7	男	4	6.5	左舌、口底	无	无	DSA+无水乙醇;扩大切除+下颌下腺瓣+放疗	无	23	N
8	男	7	4	左舌根	压痛	无	扩大切除	无	27	N
9	女	16	3.3	右舌根	自发痛	无	扩大切除;扩大切除+右下颌下腺瓣	19	33	N
10	女	29	2.8	右颊	无	无	扩大切除	无	65	N
11	男	5	3	左口咽	触痛	无	扩大切除	无	71	N
12	男	10	3.5	左舌根	压痛	无	扩大切除	无	75	N
13	男	5	5.5	左颊	压痛	无	扩大切除+左侧前臂游离皮瓣	6	-	-
14	男	61	1.5	右上前牙龈	触痛	无	扩大切除	无	-	-
15	女	6	5	右舌口底	压痛	无	扩大切除、化疗、扩大切除	6	-	-
16	男	57	4	右颊	压痛	无	扩大切除+腮部邻近瓣	无	-	-
17	女	36	6	右颊	压痛	无	扩大切除+左侧股前外侧游离皮瓣	无	22	N
18	女	27	5	下前牙龈	触痛	肺	扩大切除	20	49	肺转移死亡

注:N—无复发、无转移

3 讨论

3.1 临床特点

头颈部 ASPS 原发病例占全身 ASPS 的 15.8%~27%,以眶和舌最为多见^[10-13]。本组 18 例口腔颌面部 ASPS 患者中,原发于舌 10 例(10/18),其中舌根 5 例(5/18)、舌及口底 4 例(4/18),舌背 1 例(1/18);原发于颊部 5 例(5/18)。本组资料显示,舌是口腔颌面部 ASPS 最多发部位,以舌根、舌、口底多见,舌背较少;此外,颊也是口腔颌面部 ASPS 好发部位之一,这在以往的文献中未见报道。

ASPS 主要发生在 15~35 岁的青少年及中青年。来自 Memorial Sloan-Kettering 癌症中心的 102 例 ASPS 患者的数据^[2]显示:男性发病的中位年龄为 27 岁,女性为 22 岁;Portera 等^[4]报道 MD Anderson 癌症中心的 70 例 ASPS 患者,其发病的中位年龄为 26 岁。本组 18 例口腔颌面部 ASPS 患者的平均发病年龄为 20.2 岁(3~61 岁),较全身 ASPS 平均发病年龄偏小。进一步统计显示:本组原发于舌的患者,平均年龄为 12.3 岁(3~28 岁);原发于颊部者,平均年龄为 30.4 岁(6~57 岁)。由此可见,舌 ASPS 发病年龄小,明显低于口腔颌面部 ASPS 的平均发病年龄,其

主要发生于儿童及青少年;颊部 ASPS 发病年龄较舌晚,主要发生于中青年,这与先前的文献报道相近^[7-10,13-17]。有文献^[2,4-5]指出,ASPS 女性较男性多发,本组资料中男女比例相当,尚未表现出明显的女性好发倾向,这可能与病例数量较少有关。

ASPS 主要表现为缓慢生长的无痛性肿块,发病部位多深在,病程通常较长^[8,14,18-19]。本组 18 例患者的平均病程为 7.4 个月(1~36 个月),较全身 ASPS 明显短,病灶位于舌的 10 例患者平均病程 3.7 个月(1~10 个月),病变进展尤为迅速。本组 13 例(13/18)在病情进展中有明显的自发痛或触压痛;原发于舌根及舌、口底的患者,早期可出现打鼾、睡眠呼吸暂停、语音不清、进食及吞咽障碍等症状;而原发于颊部的患者,早期即面部畸形明显。这些都为患者的早期发现、早期就诊提供了有利条件。由此可见,原发于口腔颌面部的 ASPS 有其特殊的临床表现,首先,口腔颌面部大多部位较表浅,易于早期发现病变;此外,病情进展快,病程短,病灶多有明显的自发痛或触压痛,且早期即有颜面畸形及口腔功能障碍。

全身 ASPS 患者早期即可出现远处转移,最常见的转移部位是肺(42%~65%),其次是脑和骨,淋巴结转移(17%)较少^[15]。本组 1 例患者(1/18)在发病

初期出现肺转移;1 例患者(1/18)术后 46 个月发现多发肺转移;其他患者均无远处转移,转移率为 11.1%,较全身 ASPS 低。本组无颈淋巴结转移病例(0/18)。本组资料显示,口腔颌面部 ASPS 远处转移率较全身低,这可能与其发病初期即被发现并得到治疗有关,但尚需进一步研究证实。

3.2 诊断和组织来源

ASPS 表现多样,临床很难确诊。口腔颌面部 ASPS 病灶大体通常为黄白色,类球形,有的表面呈结节状,质地偏软,剖面多灰白,可见假性包膜,界限尚可,部分病灶中心可出现液化、坏死。镜下可见典型的腺泡样结构^[20],H-E 染色显示富含血管的结缔组织条带将多角形肿瘤细胞分隔成大小各异的细胞巢;高倍镜下见肿瘤细胞呈椭圆形或多角形,胞质内富含嗜酸性颗粒,核偏心性排列,圆形、规则、多孔样,含有空泡状染色质,且可见 1~2 个显著的核仁,核异形性较小,无明显的有丝分裂象。根据这些镜下特点,术中冷冻切片有时可给出倾向性诊断,但较难确诊。本组仅 2 例(2/18)术中冷冻切片倾向 ASPS。电镜下观察,肿瘤细胞的胞质内富含典型的致密棒状或多角形晶体,有助于 ASPS 的诊断,但 ASPS 的最终确诊还要依靠免疫组织化学及 PAS 特殊染色。ASPS 细胞的免疫组织化学标志物包括 Vim、Des、MyoD1、S-100、HMB-45、Melan-A、CD34、CD68、CD147、NSE、CEA、EMA、CgA、Syn、Ki-67 (MIB-1) 等,这些标志物在不同患者中的表现有所差别,但 Vim、Des、MyoD1、CD34、CD68、CD147 大多呈阳性,S-100、HMB-45、Melan-A、NSE 大多呈阴性,免疫组织化学结果有助于剔除具有特征性阳性染色的肿瘤类型;PAS 染色阳性是诊断 ASPS 的重要指标^[221-22]。本组 18 例均经免疫组织化学及 PAS 染色后确诊。

因其富含血管,在超声及影像学检查上容易与血管畸形或血管瘤相混淆而被误诊。但 ASPS 在 CT 和 MRI 上具有一定的特征性表现:如果病灶在 CT 上表现出外周对比增强及中央液化、坏死,或在 MRI 的 T1 和 T2 加权上出现病灶内的流空信号,则有助于 ASPS 的诊断^[10,14]。

ASPS 的组织学来源尚不十分明确,神经源性理论和肌源性理论仍存在争议^[8]。但可以肯定的是,ASPS 具有特定的染色体易位—der(17)t(x;17)(p11.2;q25),X 染色体上的 TFE3 与 17 号染色体上

的 ASPL 融合,形成一个 ASPL-TFE3 融合转录本,该融合基因的异常转录是 ASPS 的发病基础。在肿瘤细胞壁上可检测到异常融合蛋白的表达,这在 ASPS 中具有高度特异性^[8,22-23]。除免疫组织化学和 PAS 染色外,结合对该病的融合基因进行检测,对确诊也有帮助。

3.3 治疗与预后

ASPS 的治疗主要为边缘足够的手术切除^[24-26]。Marker 等^[27]指出,在手术过程中,需切除肿瘤边界外 1.0~1.5 cm 的健康组织,保证切缘阴性。本组 6 例因外院未行术中冷冻切片检查,首次切除范围可能不足而导致复发,复发时间在术后 2~20 个月之间,平均复发时间为术后 12 个月。7 例复发患者中,6 例再次行病灶扩大切除,至近期末次随访无复发。提示切除范围可能是复发的重要影响因素。切缘阳性的患者,术后复发的风险很高,预后也差^[18,21]。而出现远处转移的患者,文献报道倾向于转移灶切除,这样可以明显延长患者的无症状生存时间^[24]。

目前的研究^[2,5]表明,放、化疗对 ASPS 的疗效并不确切。但对于重要部位的病变,为保证相应器官的功能及术后外形而无法行肿瘤扩大切除时,辅助性放、化疗能在一定程度上控制残余病变^[28]。本组接受放疗 3 例,1 例肺转移患者放疗后转移灶控制良好,目前带瘤生存 19 个月;另 2 例亦未出现原发灶复发或远处转移;接受辅助化疗的 1 例患者,复发病灶体积缩小 30%,之后行手术切除。由此提示,放、化疗在控制转移灶和复发病灶方面可能具有一定的积极作用,但 ASPS 的病例较少,故还无法得出确切结论。

随着对 ASPS 发病机制及组织来源研究的深入,相应的替代性治疗策略及分子靶向治疗方案正逐渐兴起。有文献^[29-30]指出:贝伐单抗(一种人化抗 VEGF 单克隆抗体)和拓扑替康(一种具有抗血管形成特性的拓扑异构酶 1 抑制剂)联合应用以及口服西地尼布(血管内皮细胞生长因子受体酪氨酸激酶强效抑制剂)能够阻碍新生血管的形成,降低肿瘤的生长速度,并且能够显著缩小肿瘤,从而证实抗血管新生药物治疗 ASPS 的有效性。目前,有关此类药物的进一步研究仍在进行。可以预见,抗血管新生的药物疗法具有良好的临床应用前景,并且有可能对晚期 ASPS 的治疗带来突破性进展。

由于 ASPS 是一类罕见的软组织肉瘤,目前各研究机构的样本量均十分有限,因此该病患者生存

率的报道并不一致^[2,4-5]。有报道^[24]指出,青少年 ASPs 患者的生存率高于成年患者;原发于头颈部的 ASPs 因发现较早,预后较好。同时,相关文献^[2,4-5]指出,肿瘤大小及是否存在转移也是 ASPs 预后的重要影响因素。本文报道的 18 例口腔颌面部 ASPs 中,除 4 例因术后时间超过 15 a 而失访外,其余 14 例中位随访时间 33 个月(6~75 个月),近期末次随访的 14 例患者中,1 例因术后 20 个月发现局部复发并在术后 46 个月发现多发肺转移,姑息治疗 3 个月后死亡;另外 13 例均存活,其中 1 例早期肺转移带瘤生存,其余 12 例无复发、转移,预后较好。目前因随访时间较短,暂无法得到确切的 5 年生存率,还需后续跟踪随访。

利益冲突声明:无。

[参考文献]

- [1] Christopherson WM, Foote FW Jr, Stewart FW. Alveolar soft-part sarcomas: structurally characteristic tumors of uncertain histogenesis [J]. *Cancer*, 1952,5(1): 100-111.
- [2] Lieberman PH, Brennan MF, Kimmel M, et al. Alveolar soft-part sarcoma. A clinicopathologic study of half a century [J]. *Cancer*, 1989, 63(1): 1-13.
- [3] Ordóñez N, Ladanyi M. Alveolar soft part sarcoma [C]// Fletcher C, Unni K, Mertens F. World Health Organization classification of tumours, pathology and genetics, tumours of soft tissue and bone[M]. Lyon: IARC Press, 2002.
- [4] Portera CA Jr, Ho V, Patel SR, et al. Alveolar soft part sarcoma: clinical course and patterns of metastasis in 70 patients treated at a single institution [J]. *Cancer*, 2001, 91(3): 585-591.
- [5] Ogoe A, Yazawa Y, Ueda T, et al. Alveolar soft part sarcoma in Japan: multi-institutional study of 57 patients from the Japanese Musculoskeletal Oncology Group[J]. *Oncology*, 2003, 65(1):7-13.
- [6] Argyris PP, Reed RC, Manivel JC, et al. Oral alveolar soft part sarcoma in childhood and adolescence report of two cases and review of literature [J]. *Head Neck Pathol*, 2013, 7(1): 40-49.
- [7] Kayton ML, Meyers P, Wexler LH, et al. Clinical presentation, treatment, and outcome of alveolar soft part sarcoma in children, adolescents, and young adults [J]. *J Pediatr Surg*, 2006, 41(1): 187-193.
- [8] Meng N, Zhang XM, Liao A, et al. Management of recurrent alveolar soft part sarcoma of tongue after external beam radiotherapy with iodine-125 seed brachytherapy [J]. *Head Neck*, 2014, 36(12): E125-128.
- [9] Anbarasi K, Sathasivasubramanian S, Kuruvilla S, et al. Alveolar soft-part sarcoma of tongue [J]. *Indian J Pathol Microbiol*, 2011, 54(3): 581-583.
- [10] Kim HS, Lee HK, Weon YC, et al. Alveolar soft-part sarcoma of the head and neck: clinical and imaging features in five cases [J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2005, 26(6): 1331-1335.
- [11] Kanhere HA, Pai PS, Neeli SI, et al. Alveolar soft part sarcoma of the head and neck [J]. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 2005, 34(3): 268-272.
- [12] Makino Y. A clinicopathological study on soft tissue tumors of the head and neck [J]. *Acta Pathol Jpn*, 1979, 29(3): 389-408.
- [13] Hunter BC, Devaney KO, Ferlito A, et al. Alveolar soft part sarcoma of the head and neck region [J]. *Ann Otol Rhinol Laryngol*, 1998, 107(9): 810-814.
- [14] Li X, Ye Z. Magnetic resonance imaging features of alveolar [J]. *World J Surg Oncol*, 2014, 12: 36.
- [15] Fanburg-Smith JC, Miettinen M, Folpe AL, et al. Lingual alveolar soft part sarcoma; 14 cases: novel clinical and morphological observations[J].*Histopathology*,2004,45(5):526-537.
- [16] 王宏伟,代炜,秦兴军,等.颊部腺泡样软组织肉瘤 1 例报告及文献复习 [J]. *中国口腔颌面外科杂志*, 2013, 11(6): 518-523.
- [17] Wang HW, Dai W, Qin XJ, et al. A new clinical manifestation for cheek alveolar soft-part sarcoma: a case report and review of the literature [J]. *J Oral Maxillofac Surg*, 2014, 72(4): 817-822.
- [18] Cho YJ, Kim JY. Alveolar soft part sarcoma: clinical presentation, treatment and outcome in a series of 19 patients [J]. *Clin Orthop Surg*, 2014, 6(1): 80-86.
- [19] Selvarajah S, Pyne S, Chen E, et al. High-resolution array CGH and gene expression profiling of alveolar soft part sarcoma [J]. *Clin Cancer Res*, 2014, 20(6): 1521-1530.
- [20] Ogura K, Beppu Y, Chuman H, et al. Alveolar soft part sarcoma: a single-center 26-patient case series and review of the literature [J]. *Sarcoma*, 2012, 2012: 907179.
- [21] Pennacchioli E, Fiore M, Collini P, et al. Alveolar soft part sarcoma: clinical presentation, treatment, and outcome in a series of 33 patients at a single institution [J]. *Ann Surg Oncol*, 2010, 17(12): 3229-3233.
- [22] Rekhil B, Ingle A, Agarwal M, et al. Alveolar soft part sarcoma 'revisited': clinicopathological review of 47 cases from a tertiary cancer referral centre, including immunohistochemical expression of TFE3 in 22 cases and 21 other tumours [J]. *Pathology*, 2012, 44(1): 11-17.
- [23] Kobos R, Nagai M, Tsuda M, et al. Combining integrated genomics and functional genomics to dissect the biology of a cancer-associated, aberrant transcription factor, the ASPSCR1-TFE3 fusion oncoprotein [J]. *J Pathol*, 2013, 229(5): 743-754.
- [24] Folpe AL, Deyrup AT. Alveolar soft-part sarcoma: a review and update [J]. *J Clin Pathol*, 2006, 59(11): 1127-1132.
- [25] Gronchi A, Casali PG, Mariani L, et al. Status of surgical margins and prognosis in adult soft tissue sarcomas of the extremities: a series of patients treated at a single institution [J]. *J Clin Oncol*, 2005, 23(1): 96-104.
- [26] Gronchi A, Lo Vullo S, Colombo C, et al. Extremity soft tissue sarcoma in a series of patients treated at a single institution: local control directly impacts survival[J]. *Ann Surg*,2010,251(3):506-511.
- [27] Marker P, Jensen ML, Siemssen SJ. Alveolar soft-part sarcoma of the oral cavity: report of a case and review of the literature [J]. *J Oral Maxillofac Surg*, 1995, 53(10): 1203-1208.
- [28] Sherman N, Vavilala M, Pollock R, et al. Radiation therapy for alveolar soft-part sarcoma [J]. *Med Pediatr Oncol*, 1994, 22(6): 380-383.
- [29] Reis H, Hager T, Wohlschlaeger J, et al. Mammalian target of rapamycin pathway activity in alveolar soft part sarcoma [J]. *Hum Pathol*, 2013, 44 (10): 2266-2274.
- [30] Castelli C, Tazzari M, Negri T, et al. Structured myeloid cells and anti-angiogenic therapy in alveolar soft part sarcoma [J]. *J Transl Med*, 2013, 11(1): 237-240.