

10 例滤泡树突状细胞肉瘤的临床诊疗分析

Clinical Diagnosis and Management of 10 Cases with Follicular Dendritic Cell Sarcoma

LAI Xiaolong, XU Zhenju, WANG Xiaoya, QI Qingxin, GUO Yekun, ZHOU Xueyan, QIU Jie

赖小龙, 许贞菊, 王小雅, 戚庆鑫, 郭烨锟, 周学燕, 邱杰

(青岛大学附属医院, 山东 青岛 266000)

摘要: [目的] 探讨滤泡树突状细胞肉瘤的临床表现、诊疗及预后。[方法] 回顾性分析 10 例滤泡树突状细胞肉瘤患者的临床资料, 包括临床特点、影像学表现、病理特征、治疗及预后情况。[结果] 10 例患者年龄 20~81 岁, 男性 4 例, 女性 6 例, 原发肿瘤最大直径 2.3~10.2 cm。B 超多数表现为低回声结节, 边界尚清, 内部无钙化灶。CT 多数表现为软组织密度影, 边界欠清, 无钙化灶, 多呈不均匀强化。10 例患者均接受手术治疗, 术后均未接受辅助放化疗。截止最后随访日期, 10 例患者 1 例失访, 1 例死亡, 2 例带瘤生存, 6 例无瘤生存。[结论] 滤泡树突状细胞肉瘤是一种起源于滤泡树突状细胞的罕见恶性肿瘤, 缺乏典型的临床表现及影像学特征, 确诊依赖于术后石蜡病理及免疫组化, 手术是其首选的治疗方式, 放化疗的作用尚不明确。

关键词: 滤泡树突状细胞肉瘤; 甲状腺; 诊断; 治疗; 预后**中图分类号:** R730.2 **文献标识码:** B **文章编号:** 1671-170X(2024)10-0874-07**doi:** 10.11735/j.issn.1671-170X.2024.10.B012

滤泡树突状细胞肉瘤 (follicular dendritic cell sarcoma, FDSC) 是一种起源于滤泡树突状细胞的罕见恶性肿瘤, 多见于淋巴结, 而发生在胃肠道、咽、纵隔、皮肤、肝、脾等结外组织的 FDSC 较为少见^[1-2]。本研究分析了 10 例经组织病理学证实为 FDSC 患者的临床资料, 以期提高对 FDSC 的认识和诊疗水平。

1 资料与方法

1.1 临床资料

收集 2012—2023 年在青岛大学附属医院就诊的 10 例 FDSC 患者的临床资料, 包括临床特点、影像学表现、病理特征、治疗、复发后治疗及随访情况 (Table 1)。通过医院电子病历系统及电话随访, 随访截止时间为 2024 年 2 月 29 日。

1.2 方法

收集并分析 10 例患者的临床资料, 包括 B 超及 CT 等影像学表现、病理特点、治疗方法、预后情况, 并详细记录 1 例甲状腺 FDSC 合并乳头状癌患者的诊疗过程。10 例患者均接受手术治疗, 手术标本由 2 名经验丰富的病理科医生独立诊断, 通过

HE 染色切片和免疫组织化学检查确诊。本回顾性研究已获得青岛大学附属医院伦理委员会批准 (批件号: QYFYWZLL28692)。

1 例甲状腺滤泡树突状细胞肉瘤合并乳头状癌患者的诊疗过程: 女性, 74 岁, 因“发现甲状腺肿物 5 个月”于 2022 年 10 月 25 就诊于青岛大学附属医院耳鼻咽喉头颈外科。患者 5 个月前体检发现甲状腺肿物, 无颈部不适、声音嘶哑、饮水呛咳、吞咽困难、憋气、烦躁、淡漠等症状。既往高血压病史 20 年, 否认颈部放射史及家族史。查体: 甲状腺峡部可及大小约 6.0 cm×5.0 cm 肿物, 质韧、界清、无触痛。辅助检查: 促甲状腺激素、游离三碘甲状腺原氨酸、游离甲状腺素、抗甲状腺过氧化物酶抗体、甲状腺球蛋白均无异常, 抗甲状腺球蛋白抗体为 467.0 IU/mL。甲状腺超声示: 甲状腺峡部见 5.3 cm×5.1 cm×3.5 cm 低回声团块, 形态欠规则, 边界尚清; 甲状腺左叶见 3 个不均质回声结节, 大者 1.8 cm×1.5 cm, 均形态规则, 边界清。颈部 CT 平扫示: 甲状腺峡部见稍低密度肿块, 边界清, 大小约 5.0 cm×4.0 cm, 下缘突入胸腔内, 甲状腺左叶见斑点状低密度影及钙质密度影, 双侧颈部Ⅳ及Ⅵ区见多发小淋巴结 (Figure 1)。术前建议患者行细针穿刺病理学检查明确诊断, 患者拒绝, 于 2022 年 11 月 2 日在全身麻醉下行甲状腺全部切

通信作者: 邱杰, E-mail: wfqpeter2000@163.com

收稿日期: 2024-04-23; 修回日期: 2024-05-31

Table 1 Clinical data of 10 patients with FDCS

Case	Sex	Age (years old)	Chief complaint	Position	MDOIT (cm)	Pathological diagnosis	MLN/ DLN	Immunohistochemistry	Treatment	WIRA/LOR	TTR(M)/TAR	Follow-up (months)	Outcome
1	Female	74	A thyroid mass was found for 5 months	Isthmus of thyroid gland	5.30	FDCS	7/7	CD21(+), Ki-67(+, 80%), CD68(+), CD163(+), INI-1(+), Brg1(+)	Surgery	Yes/local recurrence	5/Radiotherapy	16	SWT
2	Female	81	Tonsillar mass with sore throat for 10 months	Left tonsil	2.40	FDCS	0/5	CD21(+), CD23(+), Vimentin(+), Ki-67(+, 20%), LCA(+)	Surgery	No	No	8	RRS
3	Female	67	Tumor at the floor of mouth for 5 years	Mouth floor	7.60	FDCS	0/13	CD21(+), CD35(+), Ki-67(+, 10%), CKpan(+)	Surgery	-	-	-	Loss to follow-up
4	Male	20	Right neck mass for 13 days	Neck	7.20	FDCS	0/4	CD21(+), CD35(+), Ki-67(+, 20%)	Surgery	Yes/pulmonary metastasis	10/Chemotherapy	84	SWT
5	Male	42	Right mediastinal space occupying lesion for 1 month	Right mediastinum	6.00	FDCS	0/8	CD21(+), CD23(+), CD35(+), D2-40(+), Ki-67(+, 15%)	Surgery	No	No	6	RRS
6	Female	26	Headache with vomiting for 2 weeks	Right frontal lobe	2.30	FDCS	0/0	CD21(+), Ki-67(+, 5%), ALK(D5F3)(+), D2-40(+), CD4(+), CD68(+), CD163(+), ATRX(+), P53(+, 50%), CD99(+), CyclinD1(+)	Surgery	No	No	15	RRS
7	Male	70	The patient had a liver mass for 10 months	Left lateral lobe of the liver	8.20	FDCS	0/2	Vimentin(+), S-100(+), CD31(+), Ki-67(+, 80%), CD3(+), CD10(+)	Surgery	Yes/local recurrence	2/No	2	Died
8	Female	70	Retroperitoneal mass for 2 years	Retroperitoneal	7.00	FDCS	0/0	CD21(+), CD23(+), D2-40(+), Syn(+)	Surgery	No	No	24	RRS
9	Male	47	The right upper quadrant was painful for 3 days	Right lobe of liver	10.20	IPT-like FD-CS	0/0	CD21(+), CD23(+), Ki-67(+, 20%), Vimentin(+), CXCL-13(+), D2-40(+)	Surgery	No	No	30	RRS
10	Female	74	Retroperitoneal mass for 2 months	Retroperitoneal	4.00	FDCS	0/5	Vimentin(+), CD21(+), Ki-67(+, 70%)	Surgery	No	No	40	RRS

Notes: FDCS: follicular dendritic cell sarcoma; MDOIT: maximum diameter of tumor; MLN/DLN: metastatic lymph nodes/disseminated lymph nodes; WIRA/LOR: whether it recurred again/location of recurrence; TTR (M)/TAR: time to recurrence (months)/treatment after relapse; IPT-like FDCS: inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell sarcoma; SWT: survival with tumor; RRS: recurrence-free survival.

除术+双侧Ⅵ、Ⅶ区淋巴结清扫术,术中快速病理学报告:甲状腺峡部肿物为低分化恶性肿瘤,需术后石蜡病理及免疫组化进一步分型。术后石蜡病理检查报告:①甲状腺峡部肿瘤部分区域细胞异型显著,见瘤巨细胞,核分裂相多见(约20个/10HPE),肿瘤侵透甲状腺被膜,侵及周围脂肪组织及骨骼肌组织,送检左颈Ⅵ区(4/4)及右颈Ⅵ区(2/2)、Ⅶ区(1/1)淋巴结内见肿瘤,结合形态学及免疫组化结果,诊断为FDCS。②甲状腺左叶3枚结节均为甲状腺乳头状癌,未侵及甲状腺被膜。峡部肿物免疫组化:CD21(+),CD68(灶状弱+),CD163(部分+),Ki-67(+,约80%),INI-1(+),Brg1(+),TTF-1(-),CK(-),BRAE V600E(-),TG(-),Calcitonin(-),CD34(-),S-100(-),SMA(-),Desmin(-),MyoD1(-),Pax-8(-),LCA(-),EMA(-),ALK(5A4)(-),CD30(-),P63(-),CD38(-),EBER(原位杂交-)(Figure 2)。术后口服优甲乐替代治疗,考虑患者肿瘤直径大,高增殖指数(Ki-67约80%),且存在区域淋巴结转移,建议患者于肿瘤科行辅助放疗,但患者因个人原因未行术后辅助放疗。6个月后

因喉梗阻行气管切开术,术中留取的气管前肿物结合形态学、免疫组化结果[CD21(+),D2-40(部分+),CD23(+),CD4(+),Ki-67(+70%),CK(-),Pax-8(-)]及既往临床病史,符合FDCS(复发性)(Figure 3)。随后行6个周期局部放疗,共计36次,总剂量为72 Gy。2023年11月24日患者以“气道狭窄、上呼吸道感染”入院治疗,支气管镜检查示:气管切开处见瘤样组织增生,气管腔重度狭窄,予以激光、圈套电切对症治疗,组织活检未见肿瘤细胞,复查颈部CT显示肿瘤较前无明显进展。2个月后患者出现气管食管瘘。

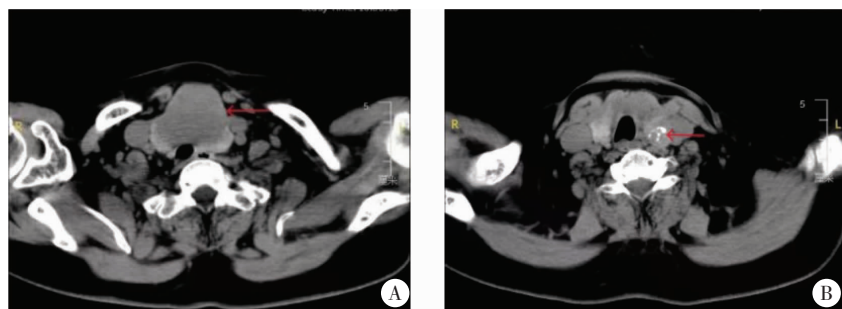
2 结果

2.1 临床特点

10例患者中,男性4例,女性6例。患者年龄20~81岁,中位年龄为68.5岁。诊断时原发肿瘤最大直径2.3~10.2 cm,中位直径6.5 cm。肿瘤原发部位:扁桃体、口底、颈部、甲状腺、纵隔、大脑额叶各1例,腹膜后、肝脏各2例。10例患者的影像学检查发现4例存在区域淋巴结肿大,其余6例患者未发现区域淋巴结肿大,所有患者均未发现远处转移。虽然文献报道大多数FDCS患者表现为缓慢生长的无痛性肿块,但本研究中仍有1例扁桃体患者因咽痛就诊,1例大脑额叶患者因头痛伴呕吐就诊,1例肝脏患者因腹痛就诊。

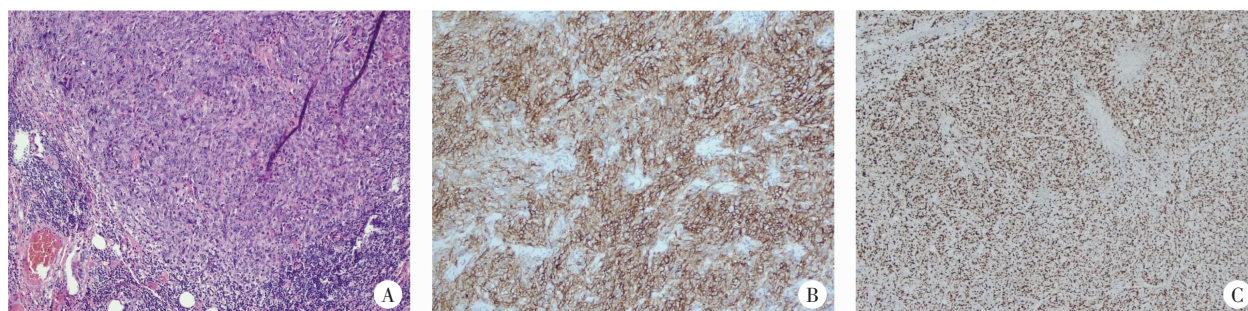
2.2 影像学特征

B超:肿瘤大多表现为低回



Notes: A: indicates hypodensity in the thyroid isthmus; B: shows calcareous density in the left thyroid lobe.

Figure 1 CT images of the neck



Notes: A: Paraffin pathological image of thyroid isthmus tumor (HE×100); B: immunohistochemical CD21(+) (SP×100); C: Immunohistochemical Ki-67 (+, about 80%) (SP×100).

Figure 2 Pathological images of thyroid isthmus tumors

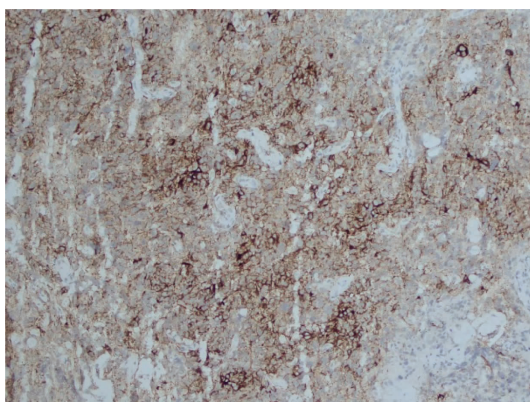


Figure 3 Pretracheal tumors immunohistochemical CD23(+)(SP×100)

声结节,边界尚清,形态欠规则,内部回声不均匀,未观察到钙化灶,但在肿瘤内部可见血流信号。

CT: 除病例 5 的 CT 图像表现为结节状钙质密度影且呈较均匀强化外,其余患者的 CT 图像大多表现为软组织密度肿块,边界欠清,无钙化灶,多呈不均匀强化。

2.3 病理特征

除病例 9 为炎性假瘤样 FDCS 外,其余 9 例均为 FDCS,其中病例 1 合并甲状腺乳头状癌。9 例 FDCS 大体检查:肿瘤呈实性结节状,切面灰白灰红,与周围组织边界清晰,质地较韧,其显微镜下检查:肿瘤细胞呈卵圆形或梭形,核仁清晰,胞浆透亮,间质可见较多淋巴细胞浸润,可伴黏液变性,部分区域细胞异型显著,可见瘤巨细胞,核分裂相多见。1 例炎性假瘤样 FDCS 大体检查:切面灰白质脆,中央似坏死;其显微镜下检查:梭形肿瘤细胞伴大片坏死,瘤细胞呈片状、交织状排列,背景见多量淋巴细胞及浆细胞浸润。10 例患者的免疫组织化学检查项目不尽相同,其中 9 例行 CD21 标志物检查,4 例行 CD23 标志物检查,3 例行 CD35 标志物检查,4 例行 Vimentin 标志物检查,2 例行 D2-40 标志物检查,结果均为阳性,9 例行 Ki-67 标志物检查的患者,阳性率在 5%~80%之间,中位阳性率为 20%。

2.4 治疗

10 例患者均行手术治疗,病例 1、2、3、5 行淋巴结清扫术。7 例患者的病理标本发现淋巴结,淋巴结数为 2~13 枚,中位数为 5 枚,但只有病例 1 病理学证实存在淋巴结转移。10 例患者术后均未接受辅助

放化疗。

2.5 复发后治疗

病例 1 术后第 5 个月发生局部复发,于肿瘤放疗科接受 6 个周期局部放疗,共 36 次,总剂量为 72 Gy,后患者规律复查,虽未发现病情进展,但出现气管狭窄及气管食管瘘等并发症。病例 4 术后第 10 个月发生肺部转移,于肿瘤科接受 5 次 60 mg 表柔比星+60 mg 顺铂,3 次 90 mg 表柔比星+90 mg 顺铂介入化疗,接受介入化疗 15 个月后,患者胸部 CT 发现右上纵隔 6.6 cm×3.6 cm 软组织密度影,活检回报为 FDCS。病例 7 术后第 2 个月发生局部复发并诱发恶病质,支持治疗无效后死亡。

2.6 随访

除病例 3 失访外,其余 9 例患者的随访时间为 2~82 个月,中位随访时间为 13 个月。病例 1、4、7 分别在术后第 5、10、2 个月出现局部复发、肺转移、局部复发并因恶病质死亡。截至最后一次随访,1 例患者失访,1 例患者死亡,2 例患者带瘤生存,6 例患者无瘤生存。

3 讨论

FDCS 是一种起源于滤泡树突细胞的罕见恶性肿瘤,最早由 Monda 于 1986 年报道^[1]。在 2016 年修订版 WHO 淋巴样肿瘤分类中,将其归类于组织细胞和树突状细胞肿瘤^[2]。欧洲罕见癌症网络报告称 FDCS 的粗发病率为每年 0.05/10 万^[3]。文献显示,FDCS 主要发生于中年人,中位发病年龄为 50 岁,无明显性别差异^[4]。

FDCS 按病变部位可以分为淋巴结内型和淋巴结外型。淋巴结内型最为常见,多发生于颈部、纵隔、腋窝的淋巴结中,约占 FDCS 的 79.4%;淋巴结外型多发生于头颈部软组织、乳腺、肝脏、脾脏、皮肤和胃肠道等淋巴结外组织中,约占 FDCS 的 15.1%^[5]。FDCS 按组织学可分为经典型和炎性假瘤样型。经典型 FDCS 缺乏典型的临床表现,其中结内型 FDCS 患者常因颈部、腋下、腹内等淋巴结肿大而就诊,结外型 FDCS 患者常无临床症状,多因影像学检查或手术切除后的组织病理学检查发现^[6];炎性假瘤样 FDCS 主要发生于女性,常位于肝脏和脾脏,多表现为腹部不适、腹痛和腹部包块,发热及体重下降等全

身症状^[7]。

FDCS 的发病机制尚不明确。文献显示经典型 FDCS 的发生可能与透明血管型 Castleman 病(hyaline-vascular Castleman's disease, HVCD) 相关^[8], Vermi 等^[9]的研究显示表皮生长因子受体(epidermal growth factor receptor, EGFR) 在 FDCS 和 HVCD 中都有不同程度的表达。炎性假瘤样 FDCS 可能与 EB 病毒(Epstein-Barr virus, EBV) 有关^[10], 一项研究显示所有炎性假瘤样 FDCS 肿瘤细胞中都能发现 EBV 编码的 RNA^[11]。从遗传学上来看, Griffin 等^[12]认为核因子 κ B 调节基因 *NFKBIA* 和 *CYLD*, 细胞进展基因 *CDKN2A* 和 *RBI*, 参与免疫逃逸的基因 *CD274* 和 *CYLD* 的周期性功能丧失可能导致了 FDCS 的发生。

FDCS 缺乏典型的临床特征, 需结合超声、影像学及穿刺活检病理学检查综合判断。当肿瘤直径较小时: 超声图像呈边界清楚、包膜完整的均匀低回声, 无血流信号, CT 平扫呈边界不清的等密度软组织影, 增强 CT 呈中等均匀强化, MRI 呈稍短 T1、T2 信号; 当肿瘤直径较大时: 超声图像仍显示边界清晰、包膜完整, 但肿块内部回声不均, 部分中央区可见树突状强回声, 有较少血流信号, CT 平扫呈边界不清的低密度软组织影, 增强 CT 呈不均匀强化, MRI 呈中央区混合信号, 周围区 T1、T2 较短信号; 当肿瘤伴有广泛坏死时: CT 平扫大多呈不规则的低密度囊变坏死区, 常有树枝状或块状钙化灶, 增强 CT 大部分区域呈无明显强化^[13-15]。此外, PET/CT 检查呈现放射性提取中度增高, 常用于 FDCS 多部位累及、复发或转移后病例的诊断^[16]。值得注意的是, 这些 FDCS 的影像学检查无特异性表现, 在其诊断中应常被误认为其他一些常见肿瘤或炎症病变, 仍然需要更多的病例来进一步研究 FDCS 的影像学特征。

FDCS 的确诊依赖于病理学检查。经典型 FDCS 细胞通常呈席纹状、弥漫状、滤泡状或小巢状排列, 多为梭形或卵圆形, 胞浆呈淡染嗜酸性, 细胞核为椭圆形, 呈轻度异型性, 可见核仁^[17]。炎性假瘤样 FD- CS 背景多为大量炎细胞浸润, 肿瘤细胞在其间散在分布, 胞质呈淡染嗜酸性, 部分可见核仁^[18]。Pagliuca 等^[7]通过文献回顾发现部分病例被误诊为炎症或其他良恶性肿瘤, 误诊原因多为 FDCS 在临床上少见且无特异性的组织病理学特征, 因此需免疫组化来提高其诊断的准确率。Li 等^[19]在对 119 例 FDCS 患

者的免疫组织化学结果统计中发现, CD21、CD35、CD23 和波形蛋白的阳性率分别为 85.0%、55.0%、31.7% 和 38.3%, 其中 CD21、CD35、CD23 是 FDCS 的特异性免疫标志物。

由于 FDCS 的发病率较低, 病例报道较少, 对于 FDCS 的治疗尚无统一的标准。目前研究认为, FDCS 是一种低中度恶性肿瘤, 手术后 28% 的患者出现局部复发, 27% 的患者出现远处转移^[20-21], 但手术仍然是局部病变患者的首选治疗方法, 辅助放化疗对生存结局的影响还需累积病例进一步证实^[22]。

放疗在 FDCS 的治疗中起着重要作用, 可以延缓疾病进程。Hu 等^[23]报道了 1 例纵隔 FDCS 侵犯胸椎及髂骨转移的患者放疗后获得较好的临床缓解, 提示放疗在中轴骨恶性病变中有较好的应用前景。Pang 等^[24]分析了 97 例头颈部 FDCS 后认为: 肿瘤大小 >4 cm 的患者应考虑放疗, 接受手术加放疗的患者与接受单纯手术的患者相比, 尽管无病生存期和总生存期没有显著改善, 但术中接受颈清扫的放疗患者局部复发的可能性显著降低。

化疗在大多数转移性 FDCS 患者的治疗中发挥重要作用, 即使目前最佳的化疗方案尚未达成共识。文献显示 FDCS 通常采用淋巴瘤化疗方案, 如 CHOP(环磷酰胺、长春新碱、阿霉素、泼尼松龙)、ICE(异环磷酰胺、卡铂、依托泊苷)、ABVD(阿霉素、博来霉素、长春新碱、达卡巴嗪)^[25]。然而, 最近的研究认为 FDCS 的临床行为和预后类似于低中级别软组织肉瘤, 因此更适合间充质肿瘤而不是造血系统恶性肿瘤的化疗方案^[26]。Conry 等^[27]的 2 例 FDCS 肝转移患者的病例报告显示, 吉西他滨和多西他赛联合化疗取得了部分持久的客观缓解。

近年来, 免疫靶点已成为癌症治疗领域的研究热点, 以 PD-1/PD-L1 抗体为代表的免疫检查点抑制剂(immune checkpoint inhibitors, ICIs)在多种实体肿瘤中取得了显著的临床疗效^[28-29]。PD-L1 染色在 50%~80% 的 FDCS 病例中呈阳性, 同时在 FDCS 中已经观察到包含 CD274(PD-L1)和 PDCD1LG2(PD-L2)的染色体 9p24 的拷贝数增加^[12], 这为 FDCS 患者使用免疫靶向治疗提供了理论依据。在临床应用中, Lee 等^[30]报道了 1 例腹膜后 FDCS 患者和 1 例盆腔 FDCS 患者, 接受武利尤单抗和伊匹木单抗联合治疗后均获得明显缓解。

抗血管生成治疗是另一种有前景的治疗策略,它与PD-1/PD-L1抗体抑制剂具有协同作用,这种协同作用可以使肿瘤血管正常化来增强T细胞的招募,募集的T细胞吞噬了大量的肿瘤细胞,从而增强机体的免疫力^[31-33]。Lei等^[34]报道了1例57岁的男性原发性小肠FDCS患者,在手术和二线全身化疗失败后接受PD-1抑制剂联合抗血管生成药物治疗,获得了7个月的无进展生存期。

FDCS为低中度恶性肿瘤,多数进展缓慢,但仍有FDCS转移的相关报道,远处转移以淋巴结、肺、肝脏最常见^[19,22]。Chen等^[35]对187例FDCS患者的汇总分析显示:局限性患者的2年和5年生存率分别为81.2%和67.3%,远处转移患者的2年和5年生存率分别为70.9%和34.2%。在Gounder等^[25]的汇总分析中,局限性和转移性患者的5年生存率分别为55%和38%。之所以产生这样的差异,可能是由于两项研究的患者数量有较大差异,因而FDCS的预后还需要大量病例长期随访研究。

综上所述,FDCS是一种低中度恶性肿瘤,在临床上较为罕见。由于缺乏典型的临床症状和影像学特征,其诊断依赖于组织病理学检查。对于FDCS的治疗尚无统一的标准,文献显示根治性手术仍然是局限性患者的首选治疗方式,术后辅以放化疗的作用虽不明确,但全身放化疗是不能手术切除或复发、转移患者的姑息性治疗方式,能够延长患者的生存期,而具体的放化疗方案需要大量的病例进一步研究。近年来,得益于分子生物技术的快速发展,免疫靶向药物、抗血管生成药物已用于FDCS患者的临床治疗,为患者的生存带来了新的希望。

参考文献:

- [1] MONDA L, WARNKE R, ROSAI J. A primary lymph node malignancy with features suggestive of dendritic reticulum cell differentiation. A report of 4 cases[J]. *Am J Pathol*, 1986, 122(3):562-572.
- [2] CHEN N, BA W, ZHAO D, et al. Response of tonsil follicular dendritic cell sarcoma to multimodal treatment including pembrolizumab: a case report and literature review[J]. *Front Oncol*, 2022, 12: 816903.
- [3] GATTA G, VAN DER ZWAN J M, CASALI P G, et al. Rare cancers are not so rare: the rare cancer burden in Europe[J]. *Eur J Cancer*, 2011, 47(17):2493-2511.
- [4] LI X Q, CHEUK W, LAM P W, et al. Inflammatory pseu-

- dotumor-like follicular dendritic cell tumor of liver and spleen: granulomatous and eosinophil-rich variants mimicking inflammatory or infective lesions [J]. *Am J Surg Pathol*, 2014, 38(5):646-653.
- [5] FACCHETTI F, SIMBENI M, LORENZI L. Follicular dendritic cell sarcoma[J]. *Pathologica*, 2021, 113(5):316-329.
- [6] CHEN T, GOPAL P. Follicular dendritic cell sarcoma[J]. *Arch Pathol Lab Med*, 2017, 141(4):596-599.
- [7] PAGLIUCA F, RONCHI A, AURICCHIO A, et al. Inflammatory pseudotumor-like follicular/fibroblastic dendritic cell sarcoma: focus on immunohistochemical profile and association with Epstein-Barr virus[J]. *Infect Agent Cancer*, 2022, 17(1):63.
- [8] CHEN H M, SHEN Y L, LIU M. Primary hepatic follicular dendritic cell sarcoma: a case report[J]. *World J Clin Cases*, 2019, 7(6):785-791.
- [9] VERMI W, GIURISATO E, LONARDI S, et al. Ligand-dependent activation of EGFR in follicular dendritic cells sarcoma is sustained by local production of cognate ligands[J]. *Clin Cancer Res*, 2013, 19(18):5027-5038.
- [10] CAILLARD S, LELONG C, PESSIONE F, et al. Post-transplant lymphoproliferative disorders occurring after renal transplantation in adults: report of 230 cases from the French registry[J]. *Am J Transplant*, 2006, 6(11):2735-2742.
- [11] GE R, LIU C, YIN X, et al. Clinicopathologic characteristics of inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell sarcoma[J]. *Int J Clin Exp Pathol*, 2014, 7(5):2421-2429.
- [12] GRIFFIN G K, SHOLL L M, LINDEMAN N I, et al. Targeted genomic sequencing of follicular dendritic cell sarcoma reveals recurrent alterations in NF- κ B regulatory genes[J]. *Mod Pathol*, 2016, 29(1):67-74.
- [13] XU L, GE R, GAO S. Imaging features and radiologic-pathologic correlations of inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell sarcoma [J]. *BMC Med Imaging*, 2021, 21(1):52.
- [14] XUE N, XUE X, SHENG C, et al. Imaging features of inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell sarcoma of the spleen [J]. *Ann Palliat Med*, 2021, 10(12):12140-12148.
- [15] XU X L, LI L Z, ZHANG N, et al. Imaging characteristics and analysis of the axillary follicular dendritic cell sarcoma[J]. *Asian J Surg*, 2023, 46(11):5318-5319.
- [16] KIM H, PARK C M, JEON Y K, et al. Follicular dendritic cell sarcoma of the mediastinum: CT and (18) F-fluoro-2-deoxyglucose PET findings[J]. *Thorac Cancer*, 2013, 4(2):203-206.

- [17] DUAN G J,WU F,ZHU J,et al. Extranodal follicular dendritic cell sarcoma of the pharyngeal region: a potential diagnostic pitfall,with literature review [J]. *Am J Clin Pathol*,2010,133(1):49–58.
- [18] KAZEMIMOOD R,SAEI HAMEDANI F,SHARIF A,et al. A rare case of epstein-barr virus negative inflammatory pseudotumor-like follicular dendritic cell sarcoma presenting as a solitary colonic mass in a 53-year-old woman; case report and review of literature[J]. *Appl Immunohistochem Mol Morphol*,2017,25(5):e30–e33.
- [19] LI J,ZHOU M L,ZHOU S H. Clinical and pathological features of head and neck follicular dendritic cell sarcoma [J]. *Hematology*,2015,20(10):571–583.
- [20] PANIGRAHI C,NAYAK H K,PATRA S,et al. Hepatic follicular dendritic cell sarcoma with epithelioid morphology: histopathologist's perspective [J]. *J Clin Exp Hepatol*,2022,12(2):677–685.
- [21] LU X,WU Y,GONG J,et al. Pancreatic follicular dendritic cell sarcoma: one case report and literature review[J]. *J Int Med Res*,2022,50(12):3000605221142401.
- [22] JAIN P,MILGROM S A,PATEL K P,et al. Characteristics,management,and outcomes of patients with follicular dendritic cell sarcoma[J]. *Br J Haematol*,2017,178(3):403–412.
- [23] HU A,CHEN T,DONG J. Promising clinical outcome after body gamma knife radiotherapy for mediastinal follicular dendritic cell sarcoma with thoracic spine invasion and iliac metastasis: a case report and literature review [J]. *Front Oncol*,2022,12: 919644.
- [24] PANG J,MYDLARZ W K,GOOI Z,et al. Follicular dendritic cell sarcoma of the head and neck; case report,literature review,and pooled analysis of 97 cases [J]. *Head Neck*,2016,38 (Suppl 1):E2241–E2249.
- [25] GOUNDER M,DESAI V,KUK D,et al. Impact of surgery,radiation and systemic therapy on the outcomes of patients with dendritic cell and histiocytic sarcomas [J]. *Eur J Cancer*,2015,51(16):2413–2422.
- [26] AGAIMY A,MICHAL M,HADRAVSKY L,et al. Follicular dendritic cell sarcoma: clinicopathologic study of 15 cases with emphasis on novel expression of MDM2,so-matostatin receptor 2A,and PD-L1[J]. *Ann Diagn Pathol*,2016,23:21–28.
- [27] CONRY R M. Response of follicular dendritic cell sarcoma to gemcitabine and docetaxel: report of two cases and literature review[J]. *Clin Sarcoma Res*,2014,4: 6.
- [28] KONSTANTINIDOU M,ZARGANES-TZITZIKAS T,MAGIERA-MULARZ K,et al. Immune checkpoint PD-1/PD-L1: is there life beyond antibodies?[J]. *Angew Chem Int Ed Engl*,2018,57(18):4840–4848.
- [29] HIRSCH L,ZITVOGEL L,EGGERMONT A,et al. PD-L1: a cancer entity with a shared sensitivity to the PD-1/PD-L1 pathway blockade[J]. *Br J Cancer*,2019,120(1):3–5.
- [30] LEE M Y,BERNABE-RAMIREZ C,RAMIREZ D C,et al. Follicular dendritic cell sarcoma and its response to immune checkpoint inhibitors nivolumab and ipilimumab[J]. *BMJ Case Rep*,2020,13(4):e234363.
- [31] MPEKRIS F,VOUTOURI C,BAISH J W,et al. Combining microenvironment normalization strategies to improve cancer immunotherapy[J]. *Proc Natl Acad Sci U S A*,2020,117(7):3728–3737.
- [32] SAEED A,PARK R,SUN W. The integration of immune checkpoint inhibitors with VEGF targeted agents in advanced gastric and gastroesophageal adenocarcinoma: a review on the rationale and results of early phase trials[J]. *J Hematol Oncol*,2021,14(1):13.
- [33] FUKUMURA D,KLOEPPER J,AMOOZGAR Z,et al. Enhancing cancer immunotherapy using antiangiogenics: opportunities and challenges [J]. *Nat Rev Clin Oncol*,2018,15(5):325–340.
- [34] LEI Y,ZHAO S,JIANG M. Unexpected favorable outcome to PD-1 antibody plus lenvatinib in a patient with recurrent intestinal follicular dendritic cell sarcoma: a case report and literature review[J]. *Front Immunol*,2021,12: 653319.
- [35] CHEN S,SUN Y,SUN W,et al. Survival analysis in patients with follicular dendritic cell sarcoma: a population-based study[J]. *Hematology*,2023,28(1):2260975.