

乳腺の adenolipoma の 1 例

原田 美貴, 森谷 卓也, 真鍋 俊明, 山下 貢司, 園尾 博司*

乳腺の adenolipoma は、まれな良性腫瘍で、被膜を有する成熟した脂肪織とその内部に散在する異型性のない乳管からなる病変である。その名称や組織発生に関しては諸説あり、一致した見解はない。現在までのところ、本邦での本症の報告は10例に満たず、症例の集積が待たれている。今回我々は38歳女性の右乳房内下領域に見られた adenolipoma の1例を経験したので文献的考察を加え報告した。(平成4年5月12日採用)

Adenolipoma of the Breast : Report of a Case and Review of Literature

Miki Harada, Takuya Moriya, Toshiaki Manabe, Koshi Yamashita and Hiroshi Sonoo*

Herein we report a case of adenolipoma found in the right breast of a 38-year-old female. Adenolipoma of the breast is a rare, well-encapsulated benign tumor composed mainly of mature adipose tissue with dispersed mammary glandular elements. A variety of names have been applied to this lesion, but its real nature remains to be clarified. To date, less than 10 cases have been reported in Japan. We add another example of adenolipoma here and review the literature on this and related lesions. (Accepted on May 12, 1992) *Kawasaki Igakkaishi* 18(2): 87-92, 1992

Key Words ① Adenolipoma ② Hamartoma ③ Breast tumor

緒 言 症 例

乳腺の adenolipoma は、Spalding によって1945年に初めてその名称で報告された比較的まれな乳腺疾患である。¹⁾ 本邦での報告は約10例で、欧米文献を含め広義に解釈し、類似名や同一病変と思われるものを集めても90例に過ぎない。^{2)~24)} その組織発生に関しては、諸説があるものの統一された見解は得られていない。今回我々は38歳の女性に発生した本病変を経験したので、その臨床・病理学的所見を報告するとともに文献的考察を加え、その組織発生、名称、臨床病態についてまとめたい。

患者: 38歳, 女性。

主 訴: 右乳房腫瘍。

既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1991年10月, 乳癌検診で右乳房に腫瘍を指摘され, 精査目的で10月29日に川崎医大附属病院内分泌外科を受診した。

入院時所見: 右乳房内下 (C) 領域に, 境界明瞭な可動性のある硬度軟の腫瘍を触知した。圧痛はなく, 皮膚病変や腋窩リンパ節の腫大もなかった。マンモグラフィーでは境界明瞭な被膜を有する約3cm大の半透明, 類円形の腫瘍が存

在し、内部に星芒状・斑状の濃い陰影や索状影の混在を認めた。石灰化はなかった (Fig. 1)。超音波検査では境界明瞭な類円形の高エコー腫瘤で、内部には低エコーの点状・斑状領域が不規則に混在した。

経過：触診や画像所見より脂肪腫と診断され、11月29日腫瘤摘出術が施行された。術中、腫瘤は被膜によって囲まれており、周囲の乳腺組織から容易に剝離できた。

肉眼所見：摘出腫瘤は5.0×2.3×2.0 cm大で、薄い被膜を有し、軽い分葉傾向がみられた。充実性で黄色調を帯び、弾性軟であった。内部には灰白色の索状、斑状領域が散在していた。

組織学的所見：全周を薄い結合織被膜によって囲まれた脂肪織に富む腫瘤で、内部にびまん性散在性に星芒状構造を示す乳腺組織が存在した (Fig. 2)。脂肪組織は成熟脂肪細胞から成り異型性はなかった。乳腺組織は正常な小葉構造を模倣し (Fig. 3 a)、中央のやや太めの導管から枝別れして、末梢乳管、さらに腺房が形成されていた (Fig. 3 b, 3 c)。多くの部位で間質に小葉間結合織の増生があり、線維化の強い部位もみられた (Fig. 3 d)。一部では小葉間結合織を伴わず、腺管が

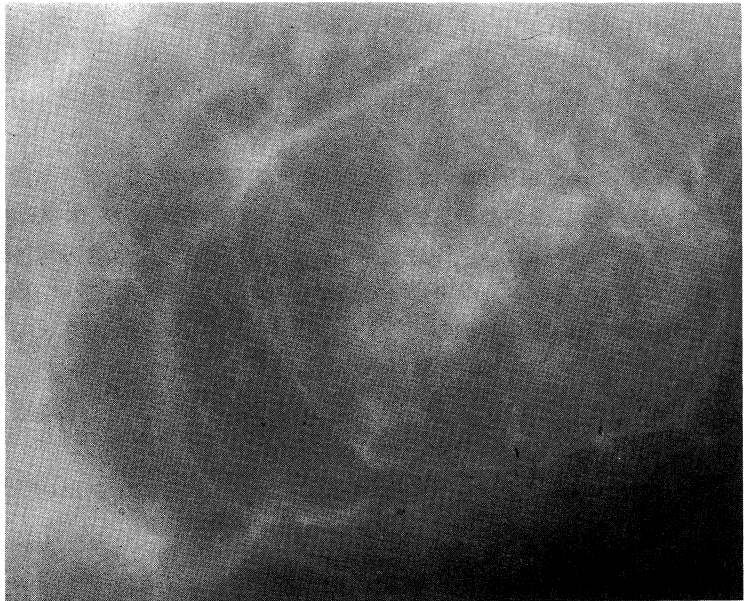


Fig. 1. Mammogram of the right breast, showing a well-encapsulated translucent oval tumor with stellate-shaped denser areas.

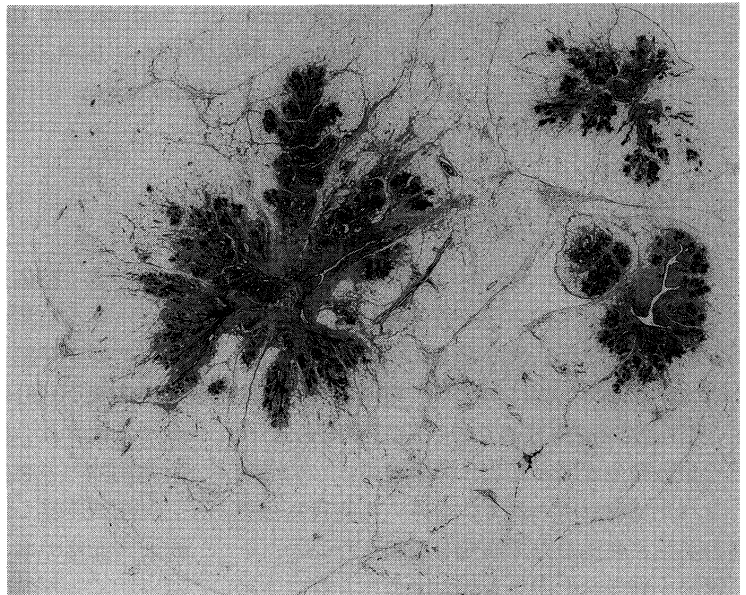


Fig. 2. A scanning photomicrograph of the adenolipoma. The tumor is surrounded by a thin fibrous capsule and composed mainly of mature adipose tissue with diffusely dispersed breast tissues.

直接脂肪織内に存在する部位も認められた(**Fig. 3 e**)。小葉間結合織中には少数のリンパ球や肥満細胞などの小円形細胞浸潤がみられた。その他、アポクリン化生(**Fig. 3 f**)や、乳管内腔に好酸性の分泌物を認める部位も混在した。いずれの上皮成分にも異型性はみられなかった。

以上の所見から、本症例を乳腺の adenoli-

poma と診断した。現在、術後4ヶ月を経過しているが再発を認めていない。

考 察

乳腺の adenolipoma は、被膜を有する成熟した脂肪織とそこに散在する異型性のない乳管

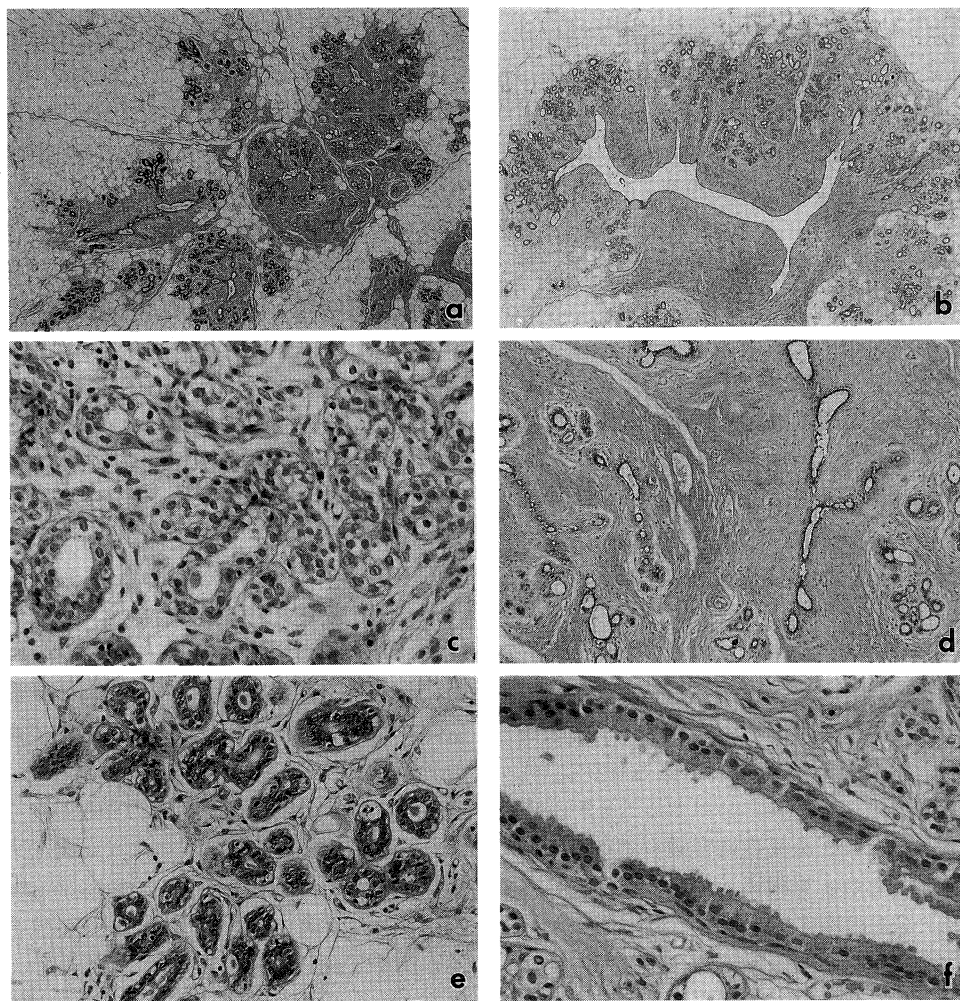


Fig. 3. Unique histological features seen in this tumor. (H-E stain)

- a, b :** The ductal and lobular structure is well-preserved and reminiscent of that seen in the normal breast. No histological atypism is present. ($\times 150$; $b \times 40$)
- c :** Slightly dilated acini shown here are filled with inspissated material. ($\times 600$)
- d :** Lobules contain a few fibrous stroma which is fairly dense in appearance. ($\times 150$)
- e :** Some acini show immediate contact with adipose tissue. ($\times 300$)
- f :** Apocrine metaplasia is also seen. ($\times 600$)

上皮の両成分からなる乳腺の良性腫瘍と定義されている。²⁵⁾ 同義語として、fibroadenolipomaやhamartoma, postlactational breast tumorなどがある。

乳腺におけるこの疾患の最初の記載は1800年代に遡る。⁶⁾ 20世紀初頭には本病変はhamartomaと考えられていた。これをadenolipomaと呼称するようになったのは1945年のSpaldingからである。その後、同病変は妊娠や授乳後に発生することが指摘され、Hogeman and Ostberg⁷⁾ はこれをpostlactational breast tumorと呼んだ。1971年にHaagensenは彼の著書の中でadenolipomaとして22例を追加報告しているが、その本質をlipomaと考えていた。⁸⁾ また最近では、同様の病変が、その構成成分の面からfibroadenolipomaと呼ばれ報告されている。^{11), 12)} このような名称の変遷は、疾患の組織発生の考え方や名称のつけ方の違いに基づいている。組織発生に関して今までに発表された説を列挙してみると、①授乳期後乳腺腫瘤説,⁷⁾ ②混合腫瘍説,^{1), 11)} ③脂肪腫の特殊型説,⁸⁾ ④過誤腫およびその一亜型説,⁴⁾ ⑤発生異常説^{5), 12)} にまとめられる。①の説はHogeman and Ostberg⁷⁾ が報告した症例がたまたま妊娠・授乳後だったことから考えられた説であるが、本症例でも授乳期とは関係ないように、症例の集積につれ否定的となっている。②の混合腫瘍説は、脂肪織も上皮成分もともに腫瘍要素と考えるもので、乳腺組織が均等に脂肪織内に分布することや、正常の小葉と異なり、小葉内結合織が認められない例が多いことなどを根拠としている。しかし、乳腺組織の分布は必ずしも均一とはいえず、細胞学的にも構造的にも正常乳腺とほとんど変わらないことから腺組織を腫瘍成分とするには問題が残る。③の説は、既存の乳腺組織内に腫瘍性脂肪細胞が侵入したとするもの(invasive lipoma)である。Haagensen⁸⁾ は軟部組織に発生する脂肪腫がしばしば骨格筋の中に浸潤する例を挙げ、これに類似性を求めている。しかし、腺組織が完全に周囲乳腺組織とは隔離されていること、乳腺組織内に神経組織が認められない

などの所見を彼の主張するinvasive lipoma説で説明することは困難と言わざるを得ない。④の説は、古来支持されてきたものである。この中に、長尾らによるhamartomaの一亜型とする説もある。彼らは脂肪織成分は腫瘍性性格が強いが乳腺組織の部分は腫瘍の性格の少ないもので、副腎にみられるmyelolipomaと同列のhamartomaと考えている。しかし、脂肪成分を新生物としての腫瘍と考えるのであれば過誤腫の一亜型ととらえるべきではあるまい。また、過誤腫内の一成分が新生物として増殖したとしても、その場合他成分と密に混在する組織像を呈するとは考え難い。Tedeschi¹²⁾ は胎生期乳房の遺残が乳腺内で发育したものと解釈し、⑤の発生異常説を提唱した。それは胎生期には乳腺組織が直接脂肪織と接することがあるが、それ以後では決してこのようなことはないという事実に基づいている。これに類似した考えとして、渡辺の分離乳腺区域(sequestrated breast tissue)説がある。³⁾ 彼は分離乳腺区域に誘導されて脂肪織が増殖すると考えている。著者らはこの発生異常を念頭に置いた上での過誤腫説が本腫瘍の発生原因として最も可能性が高いと考えている。

本病変が本当に組織奇形、つまり過誤腫性の病変であるとするればhamartomaの名称で呼んでさしつかえない。しかし、一般には発生機序の如何を問わずこれを構成成分の面から表現することが多い。従って、たとえ新生物でないとしても、乳腺組織間質に結合織の介在がなく脂肪織のみから成る腫瘤を記述的にその量の過多によりそれぞれadenolipomaとかlipoadenomaと呼ぶことは妥当である。同様に小葉内結合織を伴う例をTabár and Péntek⁹⁾ が提唱したようにfibroadenolipomaと表現することも理にかなっている。この例にならえば、我々の症例も組織像を忠実に表現し、これを成分の少ない順からfibro-adenolipomaと呼ぶのが最も適当であろう。しかし、線維成分はいずれの組織にも普遍的に存在しうるものであり、その量が多くなく増殖の主成分とは考え難いものにまでその名称を加える必要性はないように思う。従って、

我々は同一病変との認識にたつてこれらの病変を adeno-lipoma と統一して呼んでおきたい。

今回著者らが検索した限り、adenolipoma を adenofibrolipoma を含めて広義に解釈すると、現在までに約90例の報告がある。^{2)~24)} これらをまとめると以下のような臨床的特徴がある。本病変は左側乳房に約1.5倍多く発生する。両側発生例や男性例の報告は見られない。頻度はマンモグラフィーを施行した患者の0.08%¹⁵⁾ ~0.1%¹⁶⁾ と言われており、これは脂肪腫の約10分の1にあたる。発症年齢は15~88歳まで広く分布し、¹⁸⁾ 平均年齢は42歳で、脂肪腫と同じかやや若い。⁸⁾ 受診の動機は腫瘤の触知が最も多いが、無症状例もかなりある。^{2), 13), 17)} 一般的に痛みはないとされているが、まれに疼痛を伴う例の報告もあり、^{13), 15), 17), 20)} 症状の持続は短い例から30年にも及ぶものまでである。¹¹⁾ 局所所見としては、限局性の柔らかい腫瘤で、まれに皮膚との癒着を認めたとする報告もあるが、¹¹⁾ 皮膚症状や腋窩リンパ節の腫大を伴うものはない。腫瘤の大きさは1~20cm と様々である。^{18), 24)} 術前の臨床

診断はほとんどの例で脂肪腫であった。

本腫瘍の臨床診断にはマンモグラフィーで特徴的な所見が見られることから、その有用性が強調されている。“edge enhancement phenomenon”と呼ばれる被膜像¹⁵⁾ と、腫瘤内部の乳腺組織に一致する斑状・索状影が特徴的で、一般的に石灰化を伴わない。超音波検査では境界明瞭な高エコー腫瘤としてみられ、内部に不規則なエコー減衰部分が認められる。超音波画像で高エコーになる乳腺疾患はまれで、内部の不均一性は脂肪腫との鑑別に有用である。

本病変は良性疾患で、再発や転移の報告はないが、特殊例として、非浸潤性小葉癌が腫瘤の中に発生した例¹⁶⁾ や Cowden's disease との合併例の報告²⁰⁾ がある。

結 語

乳腺に発生するまれな adenolipoma の 1 例を経験したので、その疾患概念と病理学的特徴を中心に文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Spalding, J. E.: Adenolipoma and lipoma of breast. *Guy's Hosp. Rep.* 94: 80-84, 1945
- 2) 伊藤 正, 渡辺 均, 佐藤薫隆, 加藤富三, 推葉 忍, 五十嵐義晃, 横倉稔明: 乳房の腺脂肪腫 (Adenolipoma) の 1 例. *佼成医誌* 4: 63-68, 1976
- 3) 渡辺騏七郎: 乳腺の Adenolipoma について. *臨床病理 (補冊)* 34: 137, 1986
- 4) 長尾孝一, 松崎 理, 菅野 勇, 登 政和, 若山達郎, 高山 豊, 樋口和彦, 白川元昭, 丸山直記: 乳腺の Adenolipoma の 1 例. *癌の臨床* 31: 1821-1824, 1985
- 5) 石原明德, 久留宮隆, 山際健太郎, 三田孝行, 矢谷隆一: 乳腺 Adenolipoma の 1 例. *癌の臨床* 33: 1827-1832, 1987
- 6) Puente Duany, N.: Hiperplasia adenofibrolipomatosa o fibrolipomatosis periglandular de aspecto tumoral de la mama. *Arch. Cuban. Cancer* 17: 361, 1958
- 7) Hogeman, K. E. and Ostberg, G.: Three cases of postlactational breast tumor of a peculiar type. *Acta Pathol. Microbiol. Scand.* 73: 169-176, 1968
- 8) Haagensen, C. D.: *Disease of the breast.* 2nd ed. Philadelphia, Saunders. 1971, pp. 307-308
- 9) Tabár, L. and Péntek, Z.: Das Fibro-Adeno-Lipom der Mamma. *Radiologie* 15: 77-79, 1975
- 10) Skaane, V. P.: Das Fibro-Adeno-Lipom (Hamartom) der Mamma. *Fortschr. Röntgenstr.* 135: 747-748, 1981
- 11) Dyreborg, U. and Starklint, H.: Adenolipoma mammae. *Acta Radiol. Diagn.* 16: 362-366, 1975
- 12) Tedeschi, C. G.: Mammary lipoma. *Arch. Pathol. Lab. Med.* 46: 386-397, 1948
- 13) Arrigoni, M. G., Dockerty, M. B. and Judo, E. S.: The identification and treatment of mammary

- hamartoma. *Surg. Gynecol. Obstet.* 133 : 577—582, 1971
- 14) Durso, E. A. and Okla, M. : Mammographic findings in adenolipoma. *JAMA* 218 : 886, 1971
 - 15) Brebner, D. M., Cosmann, B. and Shiapiro, J. : Lipomata of the breast diagnosed by film and xeromammography. *S. Afr. Med. J.* 50 : 685—688, 1976
 - 16) Hessler, C., Aschnyder, P. and Ozzello, L. : Hamartoma of the breast : diagnostic observation of 16 cases. *Radiology* 126 : 95—98, 1978
 - 17) Andersson, I., Hildell, J., Linell, F. and Ljungqvist, U. : Mammary hamartomas. *Acta Radiol.* 20 : 712—720, 1978
 - 18) Linell, F., Ostberg, G., Soderstrom, J., Andersson, I., Hildell, J. and Ljungqvist, U. : Breast hamartomas. *Virchows Arch. [A]* 383 : 253—264, 1979
 - 19) Hauser, H., Ody, B., Plojoux, O. and Wettstein, P. : Radiological findings in multiple hamartoma syndrome (Cowden disease). *Radiology* 137 : 317—323, 1980
 - 20) Mendiola, H., Henrik-Nielsen, R., Dyregorg, U., Blichert-Toft, M. and Al-Hariri, J. A. : Lobular carcinoma in situ occurring in adenolipoma of the breast. *Acta Radiol. Diagn.* 23 : 503—505, 1982
 - 21) Jackson, F. I., Lalani, Z. and Swallow, R. J. : Adenolipoma of the breast. *J. Can. Assoc. Radiol.* 39 : 288—289, 1988
 - 22) Altermatt, H. J., Gebbers, J. O. and Laissue, J. A. : Multiple hamartomas of the breast. *Appl. Pathol.* 7 : 145—148, 1989
 - 23) Jones, M. W., Norris, H. J. and Wargotz, E. S. : Hamartomas of the breast. *Surg. Gynecol. Obstet.* 173 : 54—56, 1991
 - 24) Fechner, R. E. : Fibroadenoma and related lesions. *In* *Diagnostic histopathology of the breast*, ed. by Page, D. L. and Anderson, T. J. Edinburgh, Churchill Livingstone. 1987, pp. 72—85
 - 25) Allen, P. W. : Tumors and proliferations of adipose tissue : Clinicopathologic approach. New York, Masson Publishing. 1981, pp. 78—79