症 例

右前胸部に発生した副乳癌の1例

小笠原記念外来プラザ乳腺外科¹⁾, 小笠原記念札幌病院外科²⁾, 札幌ススキノ病院外科³⁾
田 口 和 典¹⁾ 米 森 敦 也²⁾ 宮 坂 祐 司²⁾ 瀧 川 拓 人³⁾

副乳癌は全乳癌の0.2~0.6%を占め、大部分は腋窩に発生するが、前胸部発症例は全乳癌の0.01%と極めて稀である。右前胸部に発生した副乳癌を経験したので報告する。症例は56歳、女性。右前胸部皮下腫瘍を主訴に当科を受診。乳腺堤線の上に位置する右前胸部に突出する3 cm大の硬い腫瘍を触知した。画像検査、針生検により副乳癌の術前診断で局所広範囲切除+センチネルリンパ節生検を施行した。術中迅速病理診断でセンチネルリンパ節に転移を認めなかったが、近傍にやや硬いリンパ節を複数認めたため、level I 領域の郭清を追加した。病理組織所見は硬癌で、センチネルリンパ節と郭清したリンパ節に転移はなかった。腫瘍部と正常乳腺組織との連続性はなく、右前胸部原発の副乳癌と診断した。ER陽性/PgR陽性、HER2陰性でEC療法を施行後、アロマターゼ阻害剤を投与中である。術後2年6カ月の現在、再発の徴候を認めていない。

索引用語：副乳癌、前胸部、センチネルリンパ節生検

緒 言

副乳とは腋窩より鼠径部に向かう乳腺堤線 (milk line) に沿って発生した乳腺原基のうち、固有乳腺として発達した一対以外が遺残したものである¹⁾。副乳に発生する乳癌は全乳癌の0.2~0.6%を占め^{2,3)}、大部分は腋窩に発生するが、前胸部に遺残した乳腺原基からの発症例は全乳癌の0.01%と極めて稀である³⁾。今回われわれは、右前胸部に発生した副乳癌を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：56歳、女性。

主訴：右前胸部皮下腫瘍。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：乳癌・卵巣癌の家族歴なし。

内服歴：ホルモン補充療法歴なし。

現病歴：6年前から右前胸部皮下腫瘍を自覚していたが放置。次第に増大し、疼痛を認めたため当科を受診。

初診時現症：乳腺堤線 (milk line) 上に位置する右前胸部に3 cm大、赤褐色、可動性不良の硬い腫瘍を

触知した (Fig. 1)。両側乳房に異常はなく、腋窩リンパ節、鎖骨上リンパ節も触知しなかった。

血液検査所見：腫瘍マーカー (CEA, CA15-3) を含め異常なし。

マンモグラフィ所見：右前胸部皮下腫瘍の存在部位は、撮像範囲外であるため腫瘍自体は描出されず、右乳房MIに粗大石灰化を伴う陳旧性線維腺腫を認めるのみであった (Fig. 2)。

乳房超音波検査所見：右前胸部に皮膚より隆起する34.5×24.8×24.3mm、分葉形、境界明瞭、内部不均一で血流が豊富な腫瘍を認める (Fig. 3)。その他、右乳房AB領域に粗大石灰化を伴う陳旧性線維腺腫を認めた。両側腋窩および左乳房に異常なし。

乳房造影MRI所見：右大胸筋外縁の前胸部に早期相より造影される腫瘍があり、皮膚および大胸筋外縁への直接浸潤を認める。乳腺本体との連続性は認められない (Fig. 4a)。右乳房内に乳癌を疑う所見はなく、右腋窩に転移を疑うリンパ節を認めない (Fig. 4b)。

FDG-PET/CT所見：他臓器からの転移を除外する目的で全身PET検査を施行した。右腋窩下方の前胸部にFDGの高度集積を伴う腫瘍 (SUVmax=9.9) を認めるが、他に原発腫瘍を疑う所見なし。また、右腋窩にはリンパ節転移を疑うようなFDGの取り込みを認めなかった。

2020年3月19日受付 2020年4月19日採用

〈所属施設住所〉

〒005-0012 札幌市南区真駒内上町1-1-25

針生検病理組織検査：異型細胞からなる不整な胞巣状の浸潤性増殖からなり、浸潤性乳管癌と診断された。

以上の所見より、右前胸部副乳癌の術前診断で手術を行った。

手術所見：術前の画像診断で腋窩リンパ節転移の所見を認めないため、インジゴカルミンを右乳輪下に3 ml、腫瘍周囲皮下に2 ml注入して色素法によるセンチネルリンパ節生検を施行した。腫瘍から腋窩方向に至る青染したリンパ管やセンチネルリンパ節は確認されなかったが、右乳輪方向から伸びる青染したリンパ管とそれに連なるセンチネルリンパ節1個が腋窩に同定され、摘出して術中迅速病理診断を行ったところ、転移を認めなかった。次いで、腫瘍辺縁から2 cm以上のmarginを確保して腫瘍直上と周囲の皮膚も含めた局所広範囲切除（拡大副乳腺切除）を行った（Fig.

Fig. 1 初診時現症

5). 前胸部腫瘍とC'領域の乳腺組織との連続性を評価するために、C'領域の正常乳腺組織が1 cm程度含まれる範囲をUS下にマーキングして切除範囲に加え、大胸筋外縁への浸潤部は合併切除した。なお、副乳腺切除操作中にセンチネルリンパ節の存在部位より深部に小さいがやや硬いリンパ節を複数認めたため、level I 領域の郭清を追加した。

病理組織学的所見：腫瘍は癒合腺管、篩状構造の増殖部も認めるが、索状や不整な胞巣状の浸潤性増殖が優位で、腺維の増生も伴い硬癌に相当する浸潤性乳管癌の所見であった（Fig. 6a）。大きさは29×22mmで脂肪織、皮膚、大胸筋に浸潤し、波及度はg, f, s, pであった。ly1/v0, 核Grade 2で乳管内進展を認めるが高度（25%を超える）ではなく、EIC(-)であった。また、センチネルリンパ節1個とlevel I 領域のリンパ節9個のいずれにも転移を認めず、切除断端は陰性であった。免疫化学染色にてER 97.01% / PgR 11.94%, HER2 陰性, Ki-67 19.21%であった。なお、腫瘍周囲には癌化のない乳管組織を認め（Fig. 6b）、合併切除したC'領域の正常乳腺組織との連続性を認めなかった（Fig. 6c）。以上より、本腫瘍は右前胸部原発の副乳癌と診断された。

術後経過：術後合併症などを認めず、第7病日に退院した。薬物療法としてEC（epirubicin, cyclophosphamide）療法×4コースを行い、その後はアロマターゼ阻害剤を投与中である。放射線療法は施行しなか

Fig. 2 マンモグラフィ

った。術後2年6カ月経過した現在、再発の徴候なく外来にてフォローアップ中である。

考 察

副乳とは本邦の乳癌取り扱い規約第18版において、“本来の乳房以外の胸壁、腋窩などに皮下腫瘍を作り、組織学的に乳腺組織と類似するもの”と定義されている⁴⁾。乳腺の発生過程において、左右腋窩から鼠径部に至る乳腺堤線 (milk line) には通常9対の乳腺原基が発生する¹⁾。乳腺原基は胎生4カ月頃に頭側から4番目の一対だけが固有乳腺として残り、その後発達して本来の乳房が形成され、他の乳腺原基は退化消失する¹⁾。しかし、通常退縮するはずの乳腺原基が退化せずに乳腺組織が乳房以外の乳腺堤に副乳として残存することがあり、1～6%の女性に認められる¹⁾²⁾⁵⁾。副乳に発生する副乳癌は全乳癌の0.2～0.6%を占めることが報告されており、比較的稀である²⁾³⁾。副乳癌の発生部位として、乳腺堤線上に位置する腋窩、前胸部、胸骨傍、乳房下、上腕近位部などの報告がある³⁾。大

西ら³⁾の本邦報告副乳癌162例の検討によると、腋窩発生例が86.1%と大部分を占めており、自験例のような前胸部発生例は副乳癌中5.6%であり、全乳癌の中では0.01%と極めて稀である。副乳癌の発生部位はいずれも表在性に位置するため皮膚所見を呈しやすいと考えられ、半数以上の症例に発赤・びらん・潰瘍・皮膚固定などの所見を認めることが報告されており³⁾、自験例も皮膚固定・発赤を認めた。副乳癌の診断について光吉ら⁶⁾は、①潜在性乳癌を含む他臓器からの転移性腫瘍を否定すること、②病巣周囲に癌化のみられない乳腺組織を認め、その乳腺組織と固有乳腺組織に連続性を認めないこと、③脂腺、汗腺癌など組織学的に類似する病変を除外できること、が必要としている。自験例は、①MMG・US・MRIにて両側乳房内に乳癌を疑う病変を認めず、FDG-PET/CTによる全身検索で他臓器癌を疑う所見はなく、他臓器からの転移性腫瘍も否定的であった。②病理組織学的に、非腫瘍部に癌化のない抹消乳管組織を認め、合併切除したC領域の正常乳腺組織との連続性は認められなかった。さらに、③前胸部の乳腺堤上に存在する腫瘍組織が浸潤性乳管癌の亜型である典型的な硬癌であることに加え、腫瘍周囲に乳管内病変を認めたことから脂腺・汗腺癌は否定的であり、右前胸部副乳から発生した副乳癌と診断された。なお、脂腺・汗腺癌と副乳癌は発生原基が共通であるため、通常のH.E.染色による鑑別が困難なことがある。このような場合には、免疫染色法を加えて判定した報告も多く、ER/PgR⁷⁾、gross cystic disease fluid protein-15 (GCDFFP-15)⁸⁾、EGFR⁹⁾、c-erbB-2¹⁰⁾、CK5/6¹¹⁾、CEA¹²⁾、p53¹⁰⁾、p63¹³⁾などの有用性が報告されているが、いずれの免疫組織化学染色を用いても単独で乳腺・汗腺由来腫瘍と鑑別すること

Fig. 3 乳房超音波検査

Fig. 4 乳房造影MRI

は難しいため、総合的評価が求められる。

副乳癌の手術術式において、乳房切除は予後の改善に寄与しないことが報告されており、通常局所広範囲切除が行われる¹⁴⁾¹⁵⁾。なお、手術に際しては術後病理検査にて腫瘍と乳房内固有乳腺との連続性の有無を評価して副乳癌の確定診断を行う目的で、固有乳腺組織の一部が切除範囲に含まれるようにすることが勧められている¹⁶⁾。自験例もUS下にマーキングした右C'領域の正常乳腺組織を切除範囲に加え、術後病理診断にて前胸部腫瘍との連続性がないことを確認した。副乳癌症例では通常乳癌に比べて腋窩リンパ節転移率が高いことが報告されており、局所広範囲切除に加えて一般に腋窩郭清が行われている³⁾。しかし、腋窩リンパ節郭清が行われた副乳癌の集計によれば、およそ半数の症例では腋窩リンパ節転移を認めていない³⁾。このため、副乳癌においても通常の乳癌と同様にセンチネルリンパ節生検を行い、センチネルリンパ節に転移がなければ腋窩リンパ節郭清を省略しようとする動きは当然の成り行きであろう。副乳癌手術でセンチネルリ

ンパ節生検を施行した本邦報告例は2006年以降現在まで7例のみである^{17)~23)}が、これら症例の副乳癌発生部位は腋窩5例^{18)~21)23)}、乳房下1例¹⁷⁾、乳頭尾側1例で²²⁾、自験例のような前胸部に発生した副乳癌に対してセンチネルリンパ節生検を行った報告はない。副乳のリンパ流についてはまだ十分な研究が行われておらず、固有乳腺組織からのリンパ流²⁴⁾²⁵⁾と同様に副乳から乳輪下リンパ管に一旦集まり、そこから腋窩リンパ節に向かうのか、あるいは副乳から直接所属リンパ節に流入するのかが解明されていない。このため、自験例ではセンチネルリンパ節同定のために、乳輪皮下と腫瘍周囲皮下にそれぞれインジゴカルミンを注入した。腫瘍から直接腋窩方向に至る青染したリンパ管やセンチネルリンパ節は描出されなかったが、右乳輪方向から伸びる青染したリンパ管とそれに連なるセンチネルリンパ節 (blue node) 1個を腋窩に同定した。これを摘出して術中迅速病理診断を行ったところ転移を認めなかったが、センチネルリンパ節の存在部位より深部に小さいがやや硬いリンパ節を複数認めたため、最終的にlevel I 領域の郭清を追加した。しかし、術後病理結果ではセンチネルリンパ節および郭清したlevel I 領域リンパ節のいずれにも転移を認めなかった。小松ら²³⁾の報告によれば、腋窩部発生副乳癌の直上にフチン酸テクネシウムを注入したRI法と乳輪縁にインジゴカルミンを注入した色素法を併用したtwo mapping 法により同定された複数のセンチネルリンパ節は全てRIが集積 (hot node) し、かつ青染 (blue node) したリンパ節であったことから、副乳癌からのリンパ流は乳輪下リンパ管に一旦集まり、そこから腋窩リンパ節に向かうことも示唆される。このため、通常の乳癌で導入されており、自験例で行った乳輪下

Fig. 5 切除標本

Fig. 6 病理組織学的所見 (a, b : H.E.染色×10, c : H.E.染色×4)

- 異型細胞の索状や不整な胞巣状の浸潤性増殖が優位で、線維の増生も伴い、硬癌に相当する浸潤性乳管癌の所見。
- 腫瘍辺縁の非腫瘍部に副乳腺の一部と考えられる末梢乳管を認める。
- 検体の乳頭側断端に相当する部の組織に乳腺組織は存在せず、腫瘍部と固有乳腺の連続性を認めない。

注入色素法によるセンチネルリンパ節生検は副乳癌においても有効な可能性があると思われた。しかし、副乳癌のセンチネルリンパ節生検の適応を決定するためには更なる症例の蓄積と副乳癌発生部位別の分析が必要である。

術後放射線療法については、切除組織断端が陰性の場合には一般に施行されず³⁾、術後補助薬物療法に関してはまだ一定の見解が得られていないが、通常の乳癌に準じてホルモン療法、化学療法、分子標的療法が行われている³⁾²³⁾。自験例の初期治療は化学療法としてEC療法を選択し、その後はアロマターゼ阻害剤を投与中である。切除組織断端が陰性であったため放射線療法は行わなかった。

副乳癌は通常の乳癌症例に比べて、リンパ節転移陽性率が有意に高く²⁾¹⁵⁾²⁶⁾、また皮膚所見を主訴に受診するT4症例が多いことから²⁰⁾臨床病期の進んだ症例の報告が多い²⁾¹⁵⁾²⁶⁾。しかし、臨床病期別に比較した場合には、通常の乳癌と副乳癌の予後に差はないとされている²⁷⁾。

前胸部皮下腫瘍は、マンモグラフィ検査の撮像範囲外に発生する場合や乳房超音波検査でも十分に探索されない領域に存在することがある。しかし、それが乳腺堤腺上に認められる場合には副乳癌の可能性も念頭に置くべきである。そのためには、通常の乳癌診療や乳癌検診においても同部の視触診あるいは充分な問診を行い、病変の有無を確認することが重要である。

結 語

右前胸部に発生した副乳癌の1例を経験した。副乳癌の手術では局所広範囲切除に加えて腋窩郭清が行われることが多いが、センチネルリンパ節生検の有効性も示唆された。

謝 辞

稿を終えるに当たり、病理組織学的検討を頂きました高木芳武先生（ジェネティックラボ病理解析センター病理診断部）に深謝いたします。

利益相反：なし

文 献

- 1) 金田道弘, 北村元男, 浜家一雄他：副乳癌の1症例—異所性乳癌との発生学的相違について—。日臨外会誌 1983 ; 44 : 27 - 32
- 2) Marshall MB, Moynihan JJ, Frost A, et al : Ectopic breast cancer : case report and literature review. Surg Oncol 1994 ; 3 : 295 - 304
- 3) 大西英二, 清水三矢, 友杉俊英他：腋窩に発生した副乳癌の1例。日内分泌・甲状腺外会誌 2017 ; 34 : 258 - 262
- 4) 日本乳癌学会/編：乳癌取扱い規約。第18版, 金原出版, 東京, 2018, p36
- 5) 秋田恵一, 佐藤達夫：乳房の発生と分化。武谷雄二/編：乳房とその疾患新女性医学大系20, 中山書店, 東京, 1999, p11 - 15
- 6) 光吉 明, 三好賢一, 中山三樹夫他：腋窩副乳癌の1例と本邦報告症例の検討。臨外 1990 ; 45 : 1289 - 1293
- 7) Robson A, Lazar AJ, Nagi JB, et al : Primary cutaneous apocrine carcinoma : a clinic-pathologic analysis of 24 cases. Am J Surg Pathol 2008 ; 32 : 682 - 690
- 8) Wallace ML, Longacre TA, Smoller BR : Estrogen and progesterone receptors and anti-gross cystic disease fluid protein 15 (BRST-2) fail to distinguish metastatic breast carcinoma from eccrine neoplasms. Mod Pathol 1995 ; 8 : 897 - 901
- 9) Busam KJ, Tan LK, Granter SR, et al : Epidermal growth factor, estrogen, and progesterone receptor expression in primary sweat gland carcinomas and primary and metastatic mammary carcinomas. Mod Pathol 1999 ; 12 : 786 - 793
- 10) Hasebe T, Mukai K, Yamaguchi N, et al : Prognostic value of immuno-histochemical staining for proliferating cell nuclear antigen, p53, and c-erbB-2 in sebaceous gland carcinoma and sweat gland carcinoma. Mod Pathol 1994 ; 7 : 37 - 43
- 11) Plumb SJ, Argenyi ZB, Stone MS, et al : Cytokeratin 5/6 immunostaining in cutaneous adnexal neoplasms and metastatic adenocarcinoma. Am J Dermatopathol 2004 ; 26 : 447 - 451
- 12) Robson A, Lazar AJ, Nagi JB, et al : Primary cutaneous apocrine carcinoma : a clinic-pathologic analysis of 24 cases. Am J Surg Pathol 2008 ; 32 : 682 - 690
- 13) Fernandez-Flores A : Immunohistochemical and morphologic evaluation of primary cutaneous apocrine carcinomas and cutaneous metastases from ductal breast carcinoma. Rom J Morphol Embryol 2012 ; 53 : 879 - 892

- 14) Cogswell HD, Czerny EW : Carcinoma of aberrant breast of the axilla. *Am Surg* 1961 ; 27 : 388 - 390
- 15) Evans DM, Guyton DP : Carcinoma of the axillary breast. *J Surg Oncol* 1995 ; 59 : 190 - 195
- 16) 稲治英生, 弥生恵司, 前浦義市他 : 異所性乳癌の2例. *日臨外会誌* 1985 ; 46 : 935 - 940
- 17) 大塚正樹, 山崎 修, 越後健治他 : 皮膚悪性腫瘍(非悪性黒色腫) に対するセンチネルリンパ節生検. *西日皮* 2006 ; 68 : 532 - 537
- 18) 山上裕子, 吉留克英, 水谷 伸他 : 副乳に発生した小葉癌の1例. *日臨外会誌* 2006 ; 67 : 2310 - 2313
- 19) 歌田貴仁, 榊 聖樹 : センチネルリンパ節生検を施行した検診発見非触知副乳癌. *乳癌の臨* 2007 ; 22 : 325 - 328
- 20) 坂田治人, 宮澤幸正, 松原久裕他 : 副乳粘液癌の1例. *臨外* 2008 ; 63 : 1451 - 1455
- 21) 長田麻友美, 東さおり, 新島靖子他 : 右腋窩副乳癌の1例. *皮膚臨床* 2014 ; 56 : 1059 - 1062
- 22) 後藤理沙, 山下年成, 有賀智之他 : 原発性副乳癌に対するセンチネルリンパ節生検の1施行例. *乳癌の臨* 2015 ; 30 : 475 - 481
- 23) 小松紗綾, 山下美智子, 田口加奈他 : センチネルリンパ節生検を行った腋窩部発生副乳癌の1例. *日臨外会誌* 2019 ; 80 : 2142 - 2147
- 24) Kimberg VS, Rubio IT, Henry R : Subareolar versus peritumoral injection for location of the sentinel lymph node. *Ann Surg* 1999 ; 229 : 860 - 865
- 25) Tanis PJ, Nieweg OE, Valdés Olmos RA, et al : Anatomy and physiology of lymphatic drainage of the breast from the perspective of sentinel node biopsy. *J Am Coll Surg* 2001 ; 192 : 399 - 409
- 26) Nihon-Yanagi Y, Ueda T, Kameda N, et al : A case of ectopic breast cancer with a literature review. *Surg Oncol* 2011 ; 20 : 35 - 42
- 27) 黒住昌史, 森谷卓也 : 腫瘍病理鑑別診断アトラス 乳癌. 第2版, 文光堂, 東京, 2016, p174 - 176

A CASE OF ACCESSORY BREAST CANCER IN THE ANTERIOR WALL

Kazunori TAGUCHI¹⁾, Atsuya YONEMORI²⁾, Yuji MIYASAKA²⁾ and Hiroto TAKIKAWA³⁾

Department of Breast Surgery, Ogasawara Memorial Outpatient Plaza¹⁾

Department of Surgery, Ogasawara Memorial Sapporo Hospital²⁾

Department of Surgery, Sapporo Susukino Hospital³⁾

Accessory breast cancer is rare and primarily occurs in the axillary region. There have been very few reports of accessory breast cancer in the anterior chest wall. Here, we report a case of accessory breast cancer in the anterior chest wall.

A 56-year-old female was admitted to our hospital with a subcutaneous tumor in the right anterior chest wall (so-called milk line). A core needle biopsy revealed a pathological diagnosis of breast cancer. We suspected accessory breast cancer with no lymph node metastasis due to the diagnostic imaging findings. The patient underwent local wide resection and sentinel lymph node biopsy using the dyeing method. Although rapid pathological examination showed no metastasis in the sentinel lymph node, several hard lymph nodes were found in the right axillary region. Therefore, additional axillary lymph node dissection (level I) was performed. The histopathological findings showed scirrhous carcinoma of the accessory breast, and no axillary lymph nodes metastases were found. Immunohistochemical staining was positive for ER/PgR and negative for HER2. After surgery, 4 cycles of epirubicin-cyclophosphamide, along with an aromatase inhibitor, were performed as adjuvant therapy. There has been no evidence of recurrence in the 30 months after surgery.

Key words : accessory breast cancer, anterior chest wall, sentinel lymph node biopsy