症 例

穿刺吸引細胞診で診断しえた良性脂肪芽腫の1例

高知医科大学附属病院検査部¹⁾, 同 第1病理²⁾, 同 第1外科³⁾

和田 匡代¹⁾ 高橋 保¹⁾ 植田 庄介¹⁾ 一圓 美穂¹⁾

宮崎恵利子²⁾ 松浦喜美夫³⁾ 森木 利昭¹⁾

良性脂肪芽腫は乳幼児に発生するまれな腫瘍で、細胞診の報告はほとんどみられない。われわれは穿刺吸引細胞診で診断することができた生後6ヵ月の男児例を経験したので報告する。多数の成熟脂肪細胞とともに多房性空泡を有する脂肪芽細胞が混在して採取された。毛細血管も豊富で線維性隔壁様の構造も含まれていた。脂肪肉腫とは核の異型性、多形性やクロマチンの増加がみられないこと、褐色脂肪腫とは典型的な細顆粒状好酸性胞体をもたないこと、通常の脂肪腫とは豊富な脂肪芽細胞の存在から鑑別可能と考えられる。また、発症年齢も参考になると思われる。

Key words : Lipoblastoma—Fine needle aspiration—Infant—Back—Case report

I. はじめに

良性脂肪芽腫は乳幼児の主として四肢に発生するまれな脂肪性腫瘍である。本腫瘍の細胞診の報告はこれまで捺印細胞が2例^{1,2)}、穿刺吸引細胞診が2例^{3,4)}と非常に少ない。生後6ヵ月男児の肩甲間部皮下に発生し、穿刺吸引細胞診で良性脂肪芽腫と考えられた症例を経験したので報告する。

II. 症 例

患 者 : 6ヵ月, 男児

A case of lipoblastoma diagnosed by fine needle aspiration cytology

Masayo WADA¹⁾, C.T., Tamotsu TAKAHASHI¹⁾, C.T., Shousuke UEDA¹⁾, C.T., Miho ICHIEN¹⁾, M.T., Eriko MIYAZAKI²⁾, C.T., Kimio MATSUURA³⁾, M.D., Toshiaki MORIKI¹⁾, M.D.

¹⁾Department of Clinical Laboratory, ²⁾Department of Pathology, ³⁾Department of Surgery, Kochi Medical School Hospital

論文別刷請求先 ☎ 783-8505 南国市岡豊町小蓮 高知医科大学附属病院検査部 和田匡代

平成10年3月30日受付

平成10年6月26日受理

家族歴・既往歴 : 特記事項なし

主 訴 : 背部腫瘍の増大

現病歴 : 平成9年4月、長径5cm大の肩甲間部皮下腫瘍に気づき、増大を認めるため当院第1外科を受診。穿刺吸引細胞診が行われ良性脂肪芽腫と考えられた。5月27日、腫瘍摘出術が行われた。

穿刺吸引細胞所見 : 脂肪細胞様細胞が組織塊状に多量に採取され、このなかに線維性結合組織と毛細血管が複雑に絡み合っており認められた (Photo. 1)。脂肪細胞様細胞には核が圧排された通常の成熟脂肪細胞の他に、多房性の空泡を有する脂肪芽細胞が混在してみられた (Photo. 2)。脂肪芽細胞では大小の空泡が多量にみられ、泡沫状あるいはクモの巣状、星芒状で辺縁はやや不整であった。核は小型類円形で中央あるいはやや偏在し、異型性に乏しくクロマチンは微細顆粒状であった。核小体はほとんど認められなかった (Photo. 3)。これら細胞に悪性を示唆する所見はなく、年齢からも良性脂肪芽腫が第一に考えられた。

肉眼所見 : 皮下に存在するやわらかい腫瘍で周囲組織との癒着はなく容易に摘出された。薄い線維性被膜を有し8×5×2cm大、33g。断面では分葉構造が目立ち淡黄白色充実性であった (Photo. 4)。

病理組織所見 : 線維性結合組織により小葉状に分隔

Photo. 1 Fine needle aspiration smear showing a large number of mature adipocytes and immature lipocytes admixed with delicate capillaries lying adjacent to fibrous septa-like structure (Papanicolaou stain, $\times 10$)

Photo. 2 Fine needle aspiration smear showing multivacuolated lipoblasts admixed with mature lipocytes (Papanicolaou stain, $\times 40$)

Photo. 3 Higher magnification of the smear showing a multivacuolated lipoblast. Note lack of nuclear atypia (Papanicolaou stain, $\times 100$)

Photo. 4 Gross specimen showing an encapsulated tumor with lobulated cut surface

Photo. 5 Histologic section of the tumor showing the characteristic lobular pattern with thin fibrous capsule (top) and fibrous septa (Hematoxylin and eosin stain, $\times 10$)

Photo. 6 Histologic section of the tumor showing an admixture of multivacuolated lipoblasts and mature lipocytes (Hematoxylin and eosin stain, $\times 40$)

Table 1 Differential diagnosis of lipomatous tumors

Tumor	Age	Sex*	Site	Cellular characteristics
Lipoblastoma	3≤	M>F	Extremities	Multivacuolated lipoblasts without atypia and mature fat cells
Liposarcoma	40-60	M≥F	Trunk Retroperitoneum Thigh, Knee	Atypical lipoblasts with hyperchromatic nuclei
Hibernoma	20-30	M≒F	Scapular, Interscapular	Finely vacuolated or granular cells (brown fat)
Lipoma	40-60	M≤F	Upper arms Buttocks, Back Upper thigh	Mature lipocytes

*M: male, F: female

され、成熟脂肪細胞とともに大小の空胞を有する脂肪芽細胞が、豊富な毛細血管を伴い増殖していた (Photo. 5, 6)。多房性空胞状の脂肪芽細胞には成熟脂肪細胞への移行像、分化傾向がみられた。核は異型性に乏しく、核分裂像や壊死は認めなかった。腫瘍は薄い線維性被膜を有し限局性であったことから良性脂肪芽腫と診断された。

III. 考 察

1958年に Vellios らにより脂肪芽腫症が提唱されたが⁵⁾、1973年 Chung と Enzinger は限局性発育のものを良性脂肪芽腫、被膜をもたず深部でびまん性増殖を示すものを良性脂肪芽腫症として区別した⁶⁾。良性脂肪芽腫・脂肪芽腫症はまれな腫瘍で上下肢の皮下に無痛性の腫瘍として発生することが多いが頭頸部、胸腹部、臀部、縦隔、腸間膜、後腹膜などの発生例もある。背部では良性脂肪芽腫 1例⁷⁾、脂肪芽腫症 4例が報告されている^{6,8)}。男女比は2:1で男児に多い。3歳以下の発生が大半 (88%) を占めるが⁸⁾、18歳男子の脂肪芽腫の報告もある⁷⁾。なお、生後1歳未満に起こる軟部腫瘍の約3%が脂肪芽腫・脂肪芽腫症であるという⁹⁾。本腫瘍の経過は良好で、不完全な摘出の場合は再発することもあるが⁶⁾、転移をおこすことはない。本例も再発の徴候は認めていない。

肉眼的には灰黄白色で粘液腫様あるいはゼラチン様を呈しており、良性脂肪芽腫では分葉構造が目立ち、被膜があきらかである⁶⁾。組織学的には線維性組織により大小の小葉に分画され、脂肪組織の発生過程に出現する種々の細胞 (紡錘形細胞、星芒状細胞、脂肪芽細胞、脂肪細胞など) より構成される。毛細血管も豊富で、粘液様基質も認められる。脂肪芽腫症では分葉

構造は不明瞭で周囲組織への浸潤がみられる⁶⁾。経時的には通常の脂肪腫への成熟過程がみられ、成熟脂肪細胞は小葉中心部に多いという^{4,6,7)}。本例では脂肪芽細胞、成熟脂肪細胞主体で、脂肪細胞の分布に小葉中心性の傾向はなかった。分裂像が認められなかったものの腫瘍の増大傾向がみられたのは、小型の脂肪芽細胞が成熟脂肪細胞へ比較的急速に分化しつつあったのかもしれない。

本疾患の細胞診での報告は非常に少ない¹⁻⁴⁾。その特徴は腫瘍組織の状態を反映して未熟な間葉系細胞 (紡錘形細胞) から各成熟段階の脂肪芽細胞、成熟脂肪細胞がさまざまな割合で混在し、豊富な毛細血管を伴い、また背景には粘液様物質がみられる。今回穿刺吸引された細胞は多量で成熟脂肪細胞の他に、多空胞状、クモの巣状の脂肪芽細胞や星芒状の細胞が混在していた。毛細血管も豊富で隔壁と思われる線維性組織も含まれていた。この豊富な脂肪組織塊は、乳腺や唾液腺などの穿刺吸引細胞診の際に採取される成熟脂肪細胞塊に比較し、採取量が多く密度も高いと思われる。

脂肪芽細胞がみられた場合には脂肪肉腫との鑑別が問題となる。本例では脂肪芽細胞の核に異型性や多形性、異常分裂像を認めなかった。また、脂肪肉腫は10歳以下にはほとんどみられない。発生部位が肩甲間部であったため、この部に好発する褐色脂肪腫も考えた。褐色脂肪腫には脂肪細胞様細胞が混在することがあるが、主たる細胞は細顆粒状好酸性胞体をもつ褐色脂肪細胞である。脂肪腫との鑑別は脂肪芽細胞の存在より鑑別可能である (Table 1)。なお、明瞭な隔壁様構造の存在は脂肪芽腫症というよりは脂肪芽腫を考えるべき所見と思われた。

良性脂肪芽腫・脂肪芽腫症の組織発生については不

明であるが、発症年齢が乳幼児期に多いことから過誤腫的なものとの考えもある⁷⁾。近年、脂肪性腫瘍の染色体異常が報告され¹⁰⁾、本腫瘍では8q11-13の欠失がある。粘液型脂肪肉腫ではt(12;16)(q13;p11)、褐色脂肪腫では11q、10q22の異常、また、脂肪腫でも12q13-15と他の染色体との転座、6番、13番染色体の異常が記載されている。良性脂肪芽腫(症)は経時的に脂肪腫(症)への分化がみられるが^{6,7)}、脂肪腫のような染色体異常は現在まで報告されていない。今回は染色体分析を行っていないが、成熟脂肪細胞がかなり多く含まれ、腫瘍発生を考えるうえで興味深い症例と思われる。

穿刺吸引細胞診で脂肪組織様細胞塊をみた場合、年齢を含めた臨床情報とともに採取細胞量の多さと密度、脂肪細胞様細胞を詳細に観察しその種類、異型性の有無を判定することにより良性脂肪芽腫の診断は可能と思われる。

Abstract

Background : Lipoblastoma is a rare benign neoplasm seen mostly in infants and young children and can be mistaken for a liposarcoma or other lipomatous tumors. Cytologic study of this rare tumor is exceedingly rare and has only been reported in 4 cases.

Case : A tumor was detected on the back of a 6-month-old male. Fine needle aspiration cytology was performed and the tumor was diagnosed as lipoblastoma. The characteristic features on the cytologic smears were the presence of multivacuolated lipoblasts associated with mature adipocytes. These fat cells mingled with delicate capillaries and fibrous septa-like structures. The cytologic diagnosis was confirmed by histologic study of the excised tumor.

Conclusion : Distinction of lipoblastoma from liposarcoma, which is extremely rare in infancy, is made possible by the absence of nuclear pleomorphism and hyperchromasia in

lipoblastoma. The absence of cells with granular eosinophilic cytoplasm is an important cytologic feature which distinguishes it from hibernoma, and the presence of lipoblasts discounts ordinary lipoma.

文 献

- 1) 品川俊人, 田所 衛, 竹内英子, 相田芳夫, 天本大輔, 星川咲子・ほか. 脂肪芽腫 (lipoblastoma) の1例. その捺印細胞像, ならびに代表的脂肪性腫瘍との鑑別を併せて. 日臨細胞誌 1992; 31: 639~643.
- 2) Dharan, M., Siplovich, L. Intraoperative cytology of lipoblastoma. a case report. Acta Cytologica. 1993; 37: 563~565.
- 3) Walaas, L., Kindblom, L.G. Lipomatous tumors: a correlative cytologic and histologic study of 27 tumors examined by fine needle aspiration cytology. Hum. Pathol. 1985; 16: 6~18.
- 4) Talwar, M.B., Misra, K., Marya, S.K.S., Dev, G. Fine needle aspiration cytology of a lipoblastoma. Acta Cytologica. 1990; 34: 855~857.
- 5) Vellios, G., Baez, J., Schumacher, H.B. Lipoblastomatosis: a tumor of fetal fat differentiation from hibernoma. Am. J. Pathol. 1958; 34: 1149~1159.
- 6) Chung, E.B., Enzinger, F.M. Benign lipoblastomatosis. an analysis of 35 cases. Cancer. 1973; 32: 482~492.
- 7) Collins, M.H., Chatten, J. Lipoblastoma/lipoblastomatosis: a clinicopathologic study of 25 tumors. Am. J. Surg. Pathol. 1997; 21: 1131~1137.
- 8) Mentzel, T., Calonje, E., Fletcher, C.D.M. Lipoblastoma and lipoblastomatosis: a clinicopathological study of 14 cases. Histopathol. 1993; 23: 527~533.
- 9) Coffin, C.M., Dehner, L.P. Soft tissue tumors in first year of life: a report of 190 cases. Pediat. Pathol. 1990; 22: 509~526.
- 10) Rubin, B.P., Fletcher, C.D.M. The cytogenetics of lipomatous tumors. Histopathol. 1997; 30: 507~511.