症 例

若年女性に発症した乳腺原発の腺筋上皮腫の1例

北海道大学第2外科

杉 浦 博 宮 本 正 樹 加 地 苗 人
奥 芝 俊 一 近 藤 哲 加 藤 紘 之

症例は21歳女性で、右乳房のしこりを主訴に来院。右C領域に境界明瞭で、弾性硬な5 cm大の腫瘤を触知。超音波検査で隔壁構造を有する縦横比0.31、後方エコーの増強を伴う低エコー域を認めた。エコー下の穿刺吸引細胞診はClass IIであった。腫瘤摘出術を施行し、病理組織学的に腺上皮細胞と筋上皮細胞の2つの型の腫瘍細胞が増生する腺筋上皮腫と診断された。細胞異型や核分裂像はなく、また浸潤所見もないことから追加切除はせずに経過観察とした。術後4年8カ月経過した現在、再発や転移を認めていない。乳腺原発の腺筋上皮腫の報告例は今だ少なく、本邦報告例は本症例を含め19例である。本症例は過去の報告例の中でも最も若年発症の1例であった。

索引用語：乳腺，腺筋上皮腫，adenomyoepithelioma

結 言

腺筋上皮腫 (adenomyoepithelioma) は筋上皮細胞と腺上皮細胞がともに増殖をきたす腫瘍で、唾液腺や皮膚付属器ではしばしば認められるが乳腺では稀である。今回われわれは乳腺原発の腺筋上皮腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：21歳，女性。

主訴：右乳房腫瘤。

家族歴，既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：1994年11月，右乳房腫瘤を主訴に近医を受診し，精査加療のため当科を紹介された。乳房腫瘤は3年前から自覚していた。

来院時現症：右乳房外側上方(C領域)に無痛性で径5 cmの，境界明瞭で可動性良好な硬い腫瘤を触知した。

マンモグラフィ：右乳腺C領域に辺縁平滑で石灰化を伴った腫瘤影を認めた(図1)。

乳腺超音波検査：隔壁構造を有し，内部は低エコーで後方エコーの増強を伴う径4.9×1.8cmの腫瘤陰影を認めた。境界エコーは帯状で，縦横比は0.31であった(図2)。超音波ガイド下の穿刺吸引細胞診はClass IIであった。

図1 マンモグラフィ：右乳腺C領域に辺縁平滑な腫瘤影(矢印)を認める。

図2 乳腺超音波検査：内部低エコーで後方エコーの増強を伴う径49×18mmの腫瘤陰影を認める。縦横比は0.31である。

1999年10月12日受付 1999年12月1日採用

手術所見：1994年12月21日，全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。腫瘍と周囲組織との癒着はなく，境界は明瞭であった。

病理組織学的所見：haematoxylin and eosin (HE) 染色で，腺腔形成を示す腺上皮と，その間を埋めるように増生した筋上皮の2つの型の腫瘍細胞がみられた。細胞異型はなく，また核分裂像に乏しく浸潤像も認めなかった(図3)。

免疫組織染色所見：HE染色で腺上皮と考えられた細胞はkeratin, S-100がともに陽性であり，腺上皮の管腔側の細胞膜にはepithelial membrane antigen (EMA) が陽性であった。また，筋上皮の細胞質に

図3 病理組織像 (HE 染色, ×100)：腺腔形成を示す腺上皮と，その間を埋めるように増生する筋上皮の2つの型の腫瘍細胞が増生する。

actin が陽性を示した(図4)。vimentin はいずれの成分にも陰性であった。

術後経過：術後4年8カ月経過した現在，再発や転移を認めていない。

考 察

乳腺原発の筋上皮腫は1970年に Hamperl¹⁾により初めて報告され，以後，現在までの報告はmedline による検索で123例である。また本邦報告例は本症例を含めて19例である(表1)^{2)~19)}。19例の内訳は女性18例，男性1例で，発症年齢は21から82歳，平均55歳で，50歳以上の症例が12例(63%)を占める。本症例は海外報告例も含めた過去の報告例の中で最も若年者に発症

図4 免疫組織染色像 (各×100)

Keratin	S-100
EMA	Actin

表1 乳腺原発の筋上皮腫の本邦報告19例

症例	報告者	発表年	文献番号	年齢、性別	腫瘍径(mm)	初回手術	予 後
1	Tamuraら	1988	2)	62、女	15	Simple mastectomy	再発なし(術後20M)
2	Tamuraら	1993	3)	47、男	13	Wide excision	不詳
3	村尾ら	1994	4)	26、女	21	腫瘍摘出	再発なし(術後32M)
4	堀江ら	1994	5), 6)	55、女	55	腫瘍摘出	不詳
5	堀江ら、溝淵ら	1994	5), 7)	57、女	8	腫瘍摘出	再発なし(術後39M)
6	豊島ら	1994	8)	32、女	55	腫瘍摘出	不詳
7	中村ら	1994	9)	74、女	15	腫瘍摘出	不詳
8	宮嶋ら	1994	10)	74、女	20	腫瘍摘出	不詳
9	寺田ら	1995	11)	55、女	15	腫瘍摘出	局所再発(術後22,57Mに再切除)
10	沼本ら	1995	12)	39、女	12	腫瘍摘出	局所再発(術後15,22,40Mに再切除)
11	Parkら	1996	13)	74、女	9	Excisional biopsy	再発なし(術後24M)
12	Nomuraら	1996	14)	58、女	35	MRM*, Ax***	再発なし(術後30M)
13	Koyamaら	1997	15)	49、女	10	Lumpectomy, Ax***	再発なし(術後25M)
14	Koyamaら	1997	15)	69、女	20	Quadrantectomy	再発なし(術後20M)
15	笠原ら	1997	16)	74、女	25	乳房部分切除, Ax***	再発なし(術後21M)
16	三島ら	1997	17)	38、女	15	Wide excision	再発なし
17	佐川ら	1999	18)	82、女	15	Wide excision	再発なし(術後30M)
18	Takahashiら	1999	19)	60、女	90	SRM**, Ax***	遠隔転移、原病死(術後43M)
19	自験例		本論文	21、女	49	腫瘍摘出	再発なし(術後56M)

* MRM: modified radical mastectomy, ** SRM: standard radical mastectomy, ***Ax: 腋窩リンパ節郭清

した症例であった。腫瘍径は8から90mm, 平均26mmであった。治療は症例1, 12, 18の3例に乳房切断術がなされたが, 他の16例には乳房温存手術が選択された。予後は記載のあった14例のうち, 11例は20から56カ月の観察期間でいずれも再発なく経過しているが, 症例18は発見時に既に皮膚浸潤, 潰瘍形成, 大胸筋浸潤があり, 定型的乳房切断術がなされたが骨転移, 肺転移, 縦隔リンパ節転移を来し, 術後43カ月目に原病死している¹⁹⁾。また, 症例9, 10の2例は術後に局所再発を来し, 再切除が施行されている¹¹⁾¹²⁾。

本疾患の良悪性については, 1987年に Rosen²⁰⁾が局所切除17例と乳房切断術1例を合わせた計18例の経験で, 局所切除を施行した2例に局所再発を認めたものの他に再発のないことから腺筋上皮腫を良性腫瘍と考え, 腺筋上皮腫に対する術式としては完全切除となるような局所切除が適当であるとしている。しかしながらその後, Trojani ら²¹⁾が肺転移を来した1例を, Loose ら²²⁾が胸壁, 肺, 脳に転移を来した1例を, Michal ら²³⁾が肺転移の1例を, Chen ら²⁴⁾が多発性骨転移の1例を, Foschini ら²⁵⁾が肺転移の1例を, さらに Rasbridge ら²⁶⁾が脳転移を来した1例を報告している。術後に遠隔転移を来した症例は Takahashi ら¹⁹⁾の症例を含め7例の報告があり, 乳腺原発腺筋上皮腫は幅広い生物学的特性を有する疾患と認識されつつある。また, Loose ら²²⁾は腺筋上皮腫の悪性例は組織学的に細胞異型が強く, 核分裂像が11-14/10HPF であったと報告している。

本疾患の診断には酵素抗体法が有用とされている。免疫組織化学的には EMA が腺上皮の細胞膜に, cyto-keratin が導管上皮の細胞質に陽性となり, 一方, 筋上皮では α -smooth muscle actin や actin が陽性との報告が多い²⁾³⁾⁵⁾⁶⁾⁸⁾¹¹⁾¹²⁾¹⁷⁾¹⁸⁾。S-100蛋白に関しては筋上皮細胞に陽性となるとの報告が多いが, 腺管上皮に陽性を示した症例⁹⁾や, 筋上皮のごく一部にのみ陽性を示した症例⁶⁾¹²⁾¹³⁾もあり, 報告にばらつきが多い。

Tavassoli²⁷⁾は腺筋上皮腫27例の組織学的検討から, 個々の細胞形態あるいは細胞増殖のパターンから, 紡錘状の筋上皮の増殖が著明な spindle-cell type, 腺管形成傾向の強い tubular type, 分葉した充実性胞巣を形成する lobulated type の3型に分類している。それによると, 本症例は tubular type に分類されると思われる。

本症例は組織学的に細胞異型や核分裂像に乏しく, 腫瘍径49mm と比較的大きいものの完全切除がなされ

ていたため, 追加切除はせずに経過観察とした。術後56カ月経過した現在, 局所再発や転移を認めていない。しかしながら, 多中心性発育の可能性も指摘されており¹¹⁾, 今後, さらなる注意深い経過観察が必要と思われる。

結 語

乳腺原発の腺筋上皮腫の1例を経験したので本邦19例の文献的考察を加え報告した。

稿を終えるにあたり, 病理学的検討をしていただきました, 北海道大学附属病院病理部, 清水道生助教授に感謝申し上げます。

文 献

- 1) Hamperl H: The myoepithelia (myoepithelial cells): normal state; regressive changes; hyperplasia; tumors. *Curr Top Pathol* 53: 194—198, 1970
- 2) Tamura S, Enjoji M, Toyoshima S, et al: Adenomyoepithelioma of the breast. A case report with an immunohistochemical study. *Acta Pathol Jpn* 38: 659—665, 1988
- 3) Tamura G, Monma N, Suzuki Y, et al: Adenomyoepithelioma (myoepithelioma) of the breast in a male. *Hum Pathol* 24: 678—681, 1993
- 4) 村尾 烈, 吉岡裕彰, 角南昌隆他: 乳腺の Adenomyoepithelioma の1例. *岡山外科病理誌* 31: 9—13, 1994
- 5) 堀江 靖, 猪川嗣朗, 林 英一他: 乳腺の腺筋上皮腫 Adenomyoepithelioma—2 症例の報告と文献的考察. *癌の臨* 40: 1002—1008, 1994
- 6) 堀江 靖, 猪川嗣朗, 堀 好恵他: 乳腺の Adenomyoepithelioma の1例: 穿刺吸引細胞診所見について. *岡山外科病理誌* 31: 3—8, 1994
- 7) 溝淵光一, 鶴野正基, 田口孝爾. 右乳腺に発生した Adenomyoepithelioma の1例. *岡山外科病理誌* 31: 50—51, 1994
- 8) 豊島里志: 乳腺の adenomyoepithelioma の1例. *病院病理* 11: 113, 1994
- 9) 中村宣生, 菅野 勇: 乳腺に発生した “adenomyoepithelioma” の1例. *日病理会誌* 75: 476—477, 1994
- 10) 宮嶋葉子, 伊藤 仁, 篠田玲子他: 乳腺 adenomyoepithelioma の1症例. *日臨細胞会誌* 33: 299, 1994
- 11) 寺田春彦, 赤尾周一, 阿部聡子他: 再発を繰り返した乳腺 Adenomyoepithelioma の1例. *乳癌の臨* 2: 354—356, 1995

- 12) 沼本 敏, 山川 卓: 再発を繰り返した乳腺の adenomyoepithelioma の 1 例. 病理と臨 13: 1159—1162, 1995
- 13) Park Y, Okuyama N, Hatano Y, et al: Adenomyoepithelioma of the breast: A case report and a review of the literature. Breast Cancer 3: 65—69, 1996
- 14) Nomura K, Fukunaga M, Uchida K, et al: Adenomyoepithelioma of the breast with exaggerated proliferation of epithelial cells: Report of a case. Pathol Int 46: 1011—1014, 1996
- 15) Koyama M, Kurotaki H, Yagihashi N, et al: Immunohistochemical assessment of proliferative activity in mammary adenomyoepithelioma. Histopathology 31: 134—139, 1997
- 16) 笠原善郎, 永峯 洋, 宗本義則他: 浸潤性乳管癌を伴った乳腺の腺筋上皮腫 (Adenomyoepithelioma) の 1 例. 乳癌の臨 12: 759—764, 1997
- 17) 三島晴壽, 古市基彦, 瀬在 明他: 乳腺に認めた Adenomyoepithelioma の 1 例. 日大医誌 56: 379—386, 1997
- 18) 佐川 庸, 窪園 隆, 明比 俊他: 乳腺の adenomyoepithelioma の 1 例. 日臨外会誌 60: 656—660, 1999
- 19) Takahashi I, Tashiro H, Wakasugi K, et al: Malignant adenomyoepithelioma of the breast: A case with distant metastases. Breast Cancer 6: 73—77, 1999
- 20) Rosen PP: Adenomyoepithelioma of the breast. Hum Pathol 18: 1232—1237, 1987
- 21) Trojani M, Guiu M, Trouette H, et al: Malignant adenomyoepithelioma of the breast. An immunohistochemical, cytophotometric, and ultrastructural study of a case with lung metastases. Am J Clin Pathol 98: 598—602, 1992
- 22) Loose JH, Patchefsky AS, Hollander IJ, et al: Adenomyoepithelioma of the breast. A spectrum of biologic behavior. Am J Surg Pathol 16: 868—876, 1992
- 23) Michal M, Baumruk L, Burger J, et al: Adenomyoepithelioma of the breast with undifferentiated carcinoma component. Histopathology 24: 274—276, 1994
- 24) Chen PC, Chen CK, Nicastrì AD, et al: Myoepithelial carcinoma of the breast with distant metastasis and accompanied by adenomyoepitheliomas. Histopathology 24: 543—548, 1994
- 25) Foschini MP, Pizzicannella G, Peterse JL, et al: Adenomyoepithelioma of the breast associated with low-grade adenosquamous and sarcomatoid carcinomas. Virchows Arch 427: 243—250, 1995
- 26) Rasbridge SA, Millis RR: Adenomyoepithelioma of the breast with malignant features. Virchows Arch 432: 123—130, 1998
- 27) Tavassoli FA: Myoepithelial lesions of the breast. Myoepitheliosis, adenomyoepithelioma, and myoepithelial carcinoma. Am J Surg Pathol 15: 554—568, 1991

ADENOMYOEPITHELIOMA OF THE BREAST IN A YOUNG WOMAN
—A CASE REPORT—

Hiroshi SUGIURA, Masaki MIYAMOTO, Mitsuhiro KAJI,
Shunichi OKUSHIBA, Satoshi KONDO and Hiroyuki KATOH
Second Department of Surgery, Hokkaido University School of Medicine

We report herein a rare case of an adenomyoepithelioma of the breast. A 21-year-old woman was admitted to our hospital for a painless lump in the upper outer area of the right breast. Ultrasonography of the breast demonstrated a 5-cm hypoechoic mass with a clear border and posterolateral shadow. The ratio of breadth to length of the tumor was 0.31. Ultrasound-guided fine-needle aspiration cytology showed class II. Wide excision of the tumor was performed. Histologically, the tumor was composed of proliferation of both epithelial and myoepithelial cell components. The mitotic index of the clear myoepithelial cells was low. Follow-up for fifty-six months has revealed no evidence of local recurrence or metastatic spread of the tumor. To our knowledge, this patient is the youngest one with this disease reported in the literature.