

症例報告

学童期に発生した異時性多発乳房線維腺腫の一例

法村尚子¹⁾, 紺谷桂一²⁾, 監崎孝一郎¹⁾, 倉石佳奈²⁾, 松本大昌¹⁾,
坂本晋一¹⁾, 久保尊子¹⁾, 橋本新一郎²⁾, 三浦一真¹⁾

¹⁾高松赤十字病院胸部・乳腺外科

²⁾香川大学医学部呼吸器乳腺内分泌外科

(令和2年11月27日受付)(令和2年12月25日受理)

症例は12歳女性, 増大する巨大右乳房腫瘍を主訴として近医より紹介された。受診時未月経であった。右乳房に境界明瞭弾性硬の約8cm大の腫瘍を触知した。超音波検査では右乳房内側を中心に境界明瞭, 内部やや不均一, 後方エコー不変の7.9×7.7×3.3cmの低エコー腫瘍を認めた。受診時から2ヵ月の経過観察中さらに増大傾向を認めたため乳腺腫瘍摘出術を行った。乳房の3/4程度を占める約10cmの巨大腫瘍であり, 術直後は乳房の変形を認めたが, 数ヵ月後にはほぼ変形は消失した。病理検査では9.5×9.2×3.0cmの線維腺腫と診断された。悪性所見は認められなかった。術後1年で右乳房外側に約4cmの腫瘍が出現した。再度乳腺腫瘍摘出術を行った。局在部位は以前の発生区域とは異なっていたため新たな腫瘍の発生と考えられた。術後経過は良好で, 2回目の手術から半年経過した現在は再発を認めていない。乳房線維腺腫は若年女性に好発するが学童期発症の巨大腫瘍はまれである。さらに異時性多発線維腺腫として今後も経過観察が必要と思われた。

はじめに

乳房線維腺腫は若い女性に好発する乳房良性腫瘍である。一般的には20歳から40歳までに好発するが12歳以下の学童期発症はまれである。緩余に増大することが多いがまれに急速に増大し巨大腫瘍を形成するものがあり, 外科的治療の対象になることが多い。

症 例

12歳, 女性

主訴: 増大する右乳房腫瘍

現病歴: 半年前に右乳房腫瘍に気付いた。増大傾向にあったため近医受診し, 鶏卵大の右乳房腫瘍を指摘され精査のため当院紹介となった。

既往歴: 受診時未月経。その他特記すべきことなし

家族歴: 特記すべきことなし

・初診時

視触診: 右乳房BD領域を中心として局在する手拳大に増大した分葉状, 弾性硬の腫瘍を触知した。胸壁や皮膚への固定や周囲の発赤等の所見はなかった。

血液検査: 特記すべき異常所見なし

超音波(図1A): 右乳房BD領域を中心とした境界明瞭, 内部はやや不均一, 後方エコー不変な7.9×7.7×3.3cmの低エコー腫瘍を認めた。左乳房には腫瘍性病変なし。

造影CT(図1B): 右乳房に7.4×3.6×7.5cm大の辺縁比較的平滑な充実性腫瘍を認めた。造影により内部にわずかな索状不染域が混在するが, 多くは漸増濃染され早期相では腫瘍辺縁や内部に細かな血管濃染があった。

MRI(図1C): 右乳房に楕円形で辺縁平滑, 内部隔壁のある7cm大の腫瘍を認めた。T2では比較的高信号であった。DiffusionにおけるADC値は1.423であり, 時間信号曲線(time-intensity curve: TIC)は漸増濃染, その後プラトーを呈した。

コアニードル生検: 乳管及び小葉上皮の一部で不均一な

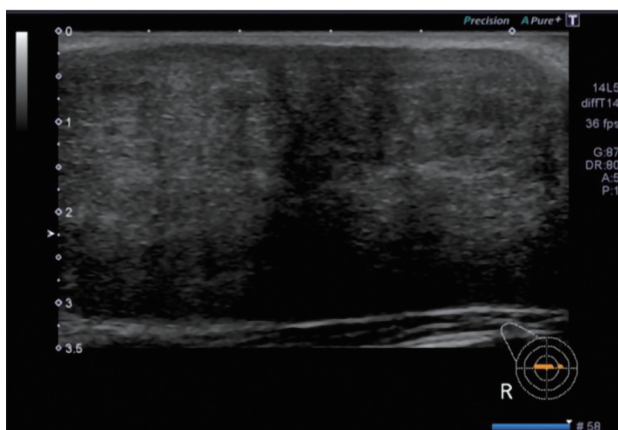


図1 A 初診時超音波
右乳房全体に境界明瞭，内部はほぼ不均一な7.9×7.7×3.3cmの低エコー腫瘤を認めた。

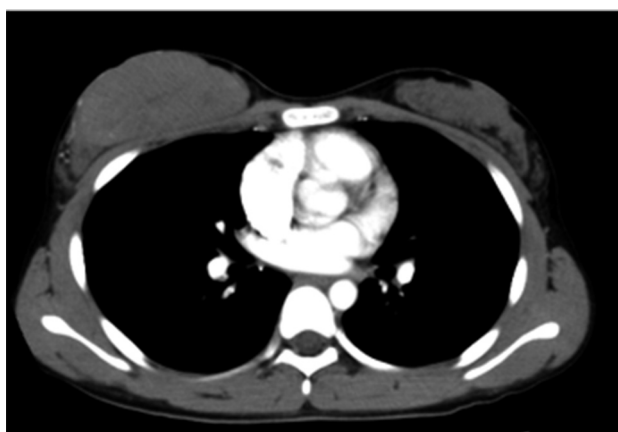


図1 B 初診時造影CT
右乳房内側に7.4×3.6×7.5cm大の辺縁比較的平滑な充実性腫瘤を認めた。



図1 C 初診時造影MRI
右乳房に楕円形で辺縁平滑，内部隔壁のある7cm大の腫瘤を認めた。T2では比較的高信号であった。

軽度核腫大を認めるが悪性像なし。線維腺腫として矛盾しないとの診断であった。

手術所見 (図2 A)：右乳房下縁に約7cm長の皮膚切開をおき，皮下には50万倍ボスミン生食を注射した。皮下を剥離し，約1cmのマージンを確保して腫瘤を摘出した。初診時最大径8cm大であったが1ヵ月後の手術時には約10cmに増大していた。

肉眼所見と病理所見 (図2 B)：9.5×9.2×3.0cm大の表面平滑腫瘍で断面は均質な乳白色調であった。組織学的には不規則な分岐や拡張を示す乳管の増生と，間質細胞が膠原繊維とともに増生している像を認めた。間質には炎症細胞浸潤も認めた。線維腺腫(管内型～類臓器型)と判断される所見であった。悪性所見は認めなかった。ER+(95%)/PgR+(95%)であった。

術後経過：術後4ヵ月目に行った超音波検査では再発は認めなかった。術直後は腫瘍が存在していた部位の乳房の陥凹を認めたが，残存していた乳腺が自然に増大し乳房の整容性が改善した。手術より約1年後に右乳房に前回と類似した乳腺腫瘤が出現した。

・再発時

未月経

血液検査：特記すべき異常所見なし

超音波 (図3 A)：右乳房外側縁に近いC領域に約4cmの分葉状境界明瞭な低エコー腫瘤を認めた。内部はやや不均一，後方エコー不変であった。左乳房には腫瘤性病変なし。

造影CT (図3 B)：右乳腺C領域に3.5cm，造影効果のある分葉状の辺縁平滑充実性腫瘤を認めた。

MRI (図3 C)：右乳腺C領域に3cm大の分葉状の腫瘤を認めた。前回とは局在部位が異なるため前回の遺残病変からの増大とは考えにくかった。

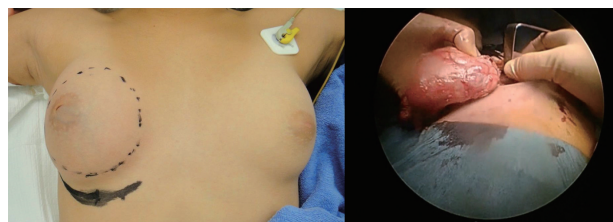


図2 A 術前乳房，手術所見

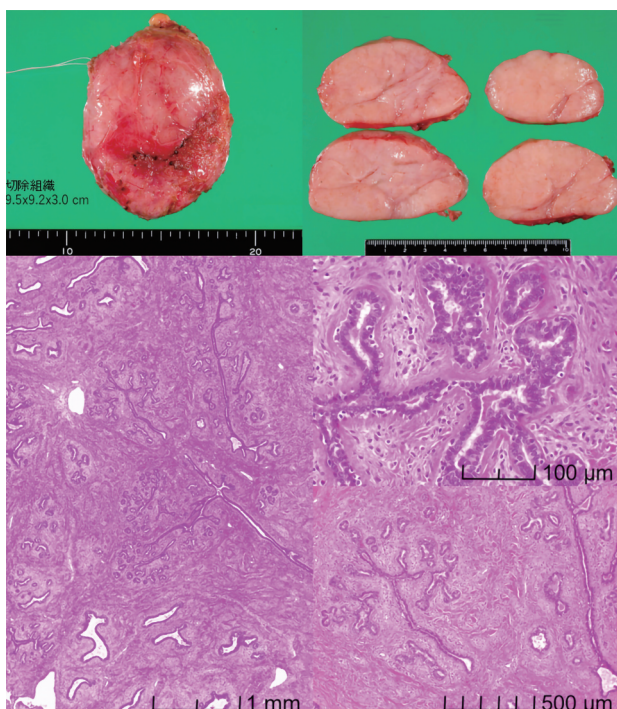


図2 B 摘出標本, 組織学的所見
9.5×9.2×3.0cm の, 表面平滑な乳白色調の均質な腫瘍であり, 線維腺腫 (管内型～類臓器型) と判断される所見であった。

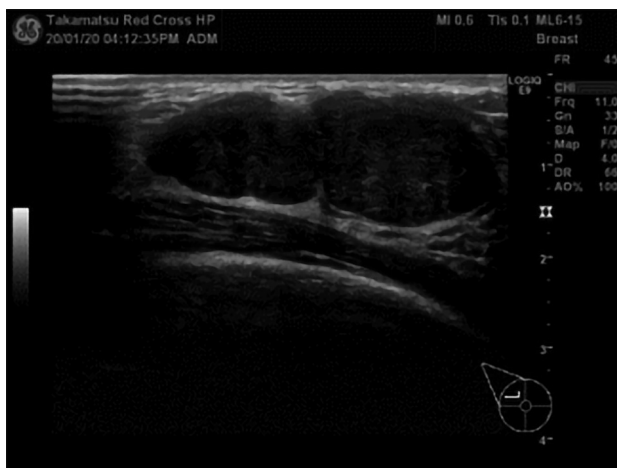


図3 A 再発時超音波
右乳房 C 領域に約 4cm の分葉状境界明瞭な低エコー腫瘍を認めた。

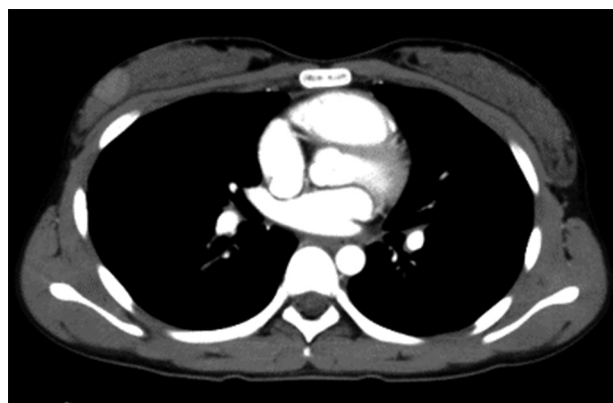


図3 B 再発時造影 CT
右乳房 C 領域に3.5cm, 分葉状辺縁平滑な充実性腫瘍を認めた。

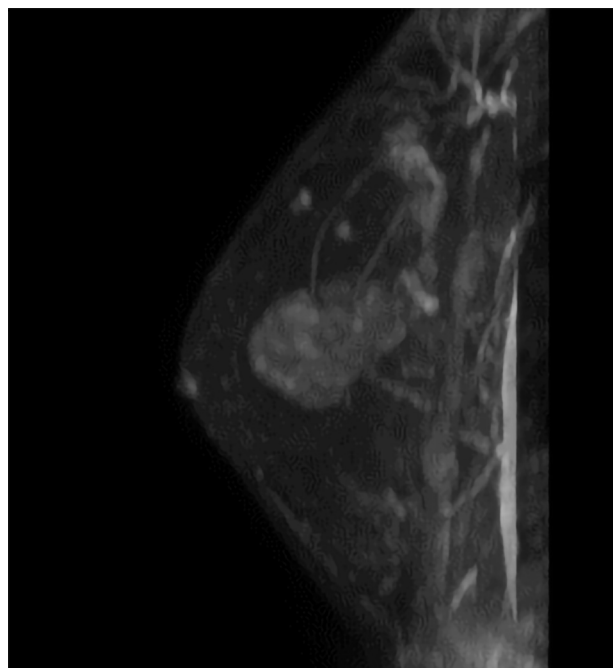


図3 C 再発時造影 MRI
右乳房 C 領域に 3cm 大の分葉状腫瘍あり。前回とは存在する領域が異なり新病変と考えられた。

手術所見：前回の右乳房下縁の皮膚切開を利用し皮下を剥離, 約 1cm のマージンを確保して腫瘍を摘出した。肉眼所見と病理所見 (図 4 A)：約 2.5cm の境界明瞭な結節。小葉構造が保たれる乳管上皮の増殖と硝子化を伴う間質細胞の増殖を認め, 初発線維腺腫と同様の所見で

あった。ER+(90%)/PgR+(90%) であった。

術後経過：経過は問題なく, 2 回目の手術から半年経過した現在は再発を認めていない。今回も残存していた正常乳腺が自然に増大し乳房の整容性も良好である (図 4

B)。

考 察

乳腺線維腺腫は若年女性に好発する代表的な乳腺良性

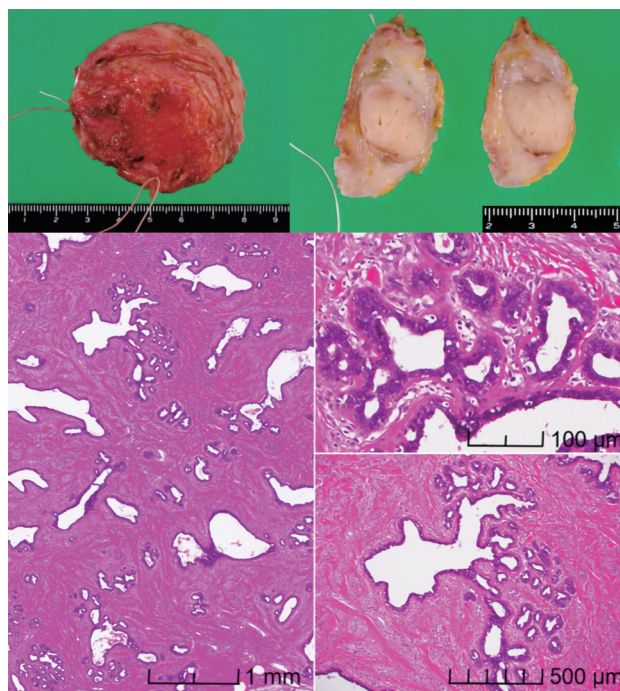


図4 A 摘出標本, 組織学的所見
約2.5cmの境界明瞭な結節。線維腺腫に一致する所見であった。



図4 B 2回目の術後の創
整容性は良好である。

腫瘍である。多くは20歳から40歳に好発するが本症例のように学童期発症はまれであり、医学中央雑誌で検索した範囲では、1999年～2018年で、19歳以下の「若年性線維腺腫」の本邦での症例報告は21例であり、本症例は22例目となる。近医受診時には鶏卵大であった腫瘍が1ヵ月後の当院受診時には手拳大になり急速増大を認めた。さらに本症例は学童のため学業に支障がないように手術日程を調整したため、初診時から手術までに1ヵ月ほどの期間を要したが、その期間にも径8cmから10cmへ増大を認めていた。線維腺腫は女性ホルモンの影響を受けて増大すると言われているが、本症例のように未月経学童期に急速増大する状況はホルモン環境だけでは説明することが困難である。

手術を行うにあたっては、若年女性であることから術後の整容性や精神的な負担、将来の授乳機能に関する問題を考えた。これまでの経過を考えると今後も本腫瘍が出現する可能性は高い。乳房の発達段階における女児においては乳腺組織をできるかぎり温存することが望ましいとの報告もあり¹⁾、全摘という選択肢より今後も摘出術を繰り返していくほうが望ましいと考える。術式としては腫瘍縁より約1cmのマージンを確保して腫瘍を摘出した。腫瘍が大きいと十分なマージンの確保が困難であるが、線維腺腫の悪性化は極めてまれであり核出術で十分とする報告も多い²⁻⁴⁾。ただし、針生検をおこなっても葉状腫瘍と線維腺腫の鑑別が困難な場合や、急速増大をするなど術前に葉状腫瘍を否定できない場合にはマージンの確保をしたいところである。また皮膚切開は右乳房下縁とし、傷を目立たなくすることにも努めた。線維腺腫初回手術時腫瘍は乳房の大部分を占めており正常乳腺は外側にわずかに認められるのみであったが、一般的には正常乳腺は圧排されているだけであり、腫瘍摘出後の乳腺は成長に伴い発育すると考えられている^{5,6)}。初回術直後は腫瘍が存在していた部位の乳房の陥凹を認めたが、術後約1年の再発時、腫瘍摘出後のdead spaceは発育した乳腺によって消失していた。また2回目の手術後も整容性は良好であった。ただ、増大した乳腺の授乳機能を確認した報告は少なく、今後も長期的は評価が必要である。

腫瘍の急速増大はエストロゲン刺激との関係も示唆されている^{7,8)}。また、エストロゲン刺激により、初潮開始から1～3年以内に発生しやすいとの報告もある^{7,9)}。本症例ではエストロゲンレセプター陽性であったが、若年性線維腺腫のホルモン依存性を検討した報告はほとん

どない¹⁰⁾。今回の症例では未だ初潮を迎えていないが急速増大を認めており、また術後1年での再発時も未月経であった。短期間（半年～3年）経過観察が多いためか再発例の報告はほとんどない。長期経過観察が必要と思われる。本症例は再発部位（乳房外縁付近のC領域）が初発部位（BD領域）と異なっていたため、初回手術の遺残腫瘍からの増大よりは異時性多発病変と考えられた。今後も新病巣や再発巣の急速増大のリスクを考慮して厳重な経過観察が必要と考えられる。

結 語

12歳学童女児の急速に増大する若年性線維腺腫の再発例を経験した。若年女性では乳房の整容性の保持と授乳機能の温存が重要である。今後の長期的な経過観察が必要と考える。

謝 辞

ご指導を頂きました病理科部 荻野 哲朗先生に感謝の意を表します。

文 献

- 1) 上江洌一平, 小野亮子, 宮国孝: 12歳女児に発生した乳腺若年性線維腺腫の1例. 日本臨床外科学会雑誌, 74(5): 1187-1192, 2013
- 2) Pike, A. M., Oberrnan, H. A.: Juvenile (cellular) adenofibromas, a clinicopathological study. Am J Surg Pathol., 9: 730-736, 1985
- 3) 臨床・病理 乳癌取扱い規約. (日本乳癌学会/編), 第17版, 金原出版, 東京, 2012, p29
- 4) 梶原博, 安田政実, 長村義之: 若年性線維腺腫. 病理と臨, 19: 398-400, 2001
- 5) 佐藤礼子, 金子真美, 北原智美, 吉野裕司 他: 12歳女児右乳房線維腺腫(径13cm)の1例. 日本臨床外科学会雑誌, 78: 648-653, 2017
- 6) 後藤與四成, 西村誠一郎, 蒔田益次郎, 秋山太 他: 術後の時間経過とともに整容性が改善された12歳女児の若年性線維腺腫の1例. 乳癌の臨床, 29: 393-396, 2014
- 7) 池原智彦, 大場崇旦, 前野一真, 伊藤研一 他: 初潮とともに急速増大した14歳乳腺線維腺腫の1例. 日本臨床外科学会雑誌, 79: 1187-1192, 2018
- 8) 森本忠興, 園尾博司, 小紫康, 宇山幸久 他: いわゆる乳腺巨大腺腫とそのホルモン依存性についての検討. 癌の臨床, 23: 99-104, 1977
- 9) West, W. K., Rescorla, J. F., Scherer 3rd, L. R., Grosfeld, J. L., *et al.*: Diagnosis and treatment of symptomatic breast masses in the pediatric population. J Pediatr Surg., 30: 182-187, 1995
- 10) 松田充宏, 泉對貴子, 松葉芳郎, 飛田浩司 他: 経過観察中に診断された若年性線維腺腫の1例. 臨床外科, 69: 743-746, 2014

Juvenile asynchronous multiple breast fibroadenomas

Shoko Norimura¹⁾, Keiichi Kontani²⁾, Koichiro Kenzaki¹⁾, Kana Kuraishi²⁾, Hiromasa Matsumoto¹⁾, Shinichi Sakamoto¹⁾, Takako Kubo¹⁾, Shinichiro Hashimoto²⁾, and Kazumasa Miura¹⁾

¹⁾*Thoracic and Breast Surgery, Takamatsu Red Cross Hospital, Kagawa, Japan*

²⁾*Department of Thoracic, Breast and Endocrine Surgery, Kagawa University Faculty of Medicine, Kagawa, Japan*

SUMMARY

A 12-year-old, premenarchal girl with a rapidly growing breast lump was transferred to our hospital. Ultrasonography revealed a 7.9×7.7×3.3 cm large well-circumscribed hypoechoic tumor in the medial region of her right breast. After 2 months of this first visit, the breast lump had enlarged to 10 cm in diameter and was consequently subjected to a wide excision. Size of the tumor was 9.5×9.2×3.0 cm. Histopathological diagnosis was fibroadenoma without any malignant component. One year after the operation, a new lump with a diameter of 4 cm was detected in the lateral region of her right breast that had a similar appearance of the previous tumor. The tumor was excised as earlier and diagnosed as fibroadenoma.

We present an extremely rare case of a rapidly growing breast fibroadenoma in a premenarchal girl. To the best of our knowledge, there were only 21 cases reported in Japan. Since the patient is concerned that another asynchronous fibroadenoma might occur, she needs a long-term and careful follow-up.

Key words : juvenile, rapidly growing mass, multiple breast lump