

# 直接刺激運動誘発電位と経頭蓋刺激運動誘発電位を併用し被膜間摘出術を行った腕神経叢神経鞘腫の1例

柿本昂佑樹<sup>1)</sup>, 荻原浩太郎<sup>1, 2)</sup>, 廣瀬安章<sup>1)</sup>, 馬場芙希子<sup>1)</sup>, 西 和彦<sup>1)</sup>, 伊丹尚多<sup>1)</sup>, 大塚真司<sup>1)</sup>, 日下昇<sup>1)</sup>, 西浦 司<sup>1, 2)</sup>, 林 隆宏<sup>2, 3)</sup>

1) 国立病院機構岩国医療センター脳神経外科 〒740-8510 山口県岩国市愛宕町 1-1-1

2) 国立病院機構岩国医療センター脊椎脊髄センター

3) 国立病院機構岩国医療センター整形外科

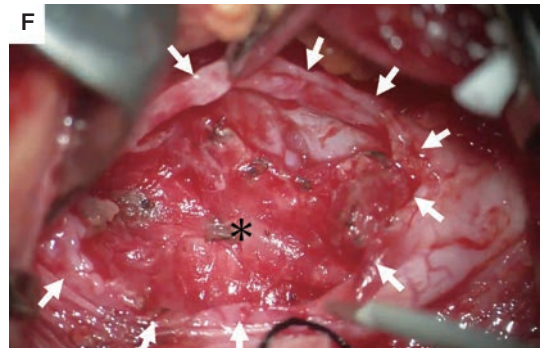
**78** 歳女性，右鎖骨上窩の腫瘤を認め右上肢に放散するしびれと疼痛を来したため，神経原発性腫瘍が疑われ当科紹介となった。画像所見から腕神経叢神経鞘腫と診断した。腫瘍が増大傾向かつ症状が進行したため摘出術を施行した。直接刺激運動誘発電位と経頭蓋刺激神経誘発電位を併用し，被膜間摘出術を施行した。腫瘍は亜全摘され症状は改善，合併症は認めなかった。

腕神経叢神経鞘腫は時に摘出術を要し，手術に際しては神経機能温存が重要となる。末梢神経鞘腫摘出において正常神経線維を温存し，腫瘍を全摘出する術式として被膜間摘出術がある。また，経頭蓋刺激神経誘発電位と直接刺激神経誘発電位の併用で，より安全に本術式を施行することが可能であった。

## Key Words

brachial plexus tumor, interscapsular resection, intraoperative neurophysiological monitoring, motor evoked potential

## Key Slide



(Received January 15, 2024; Accepted April 24, 2024)

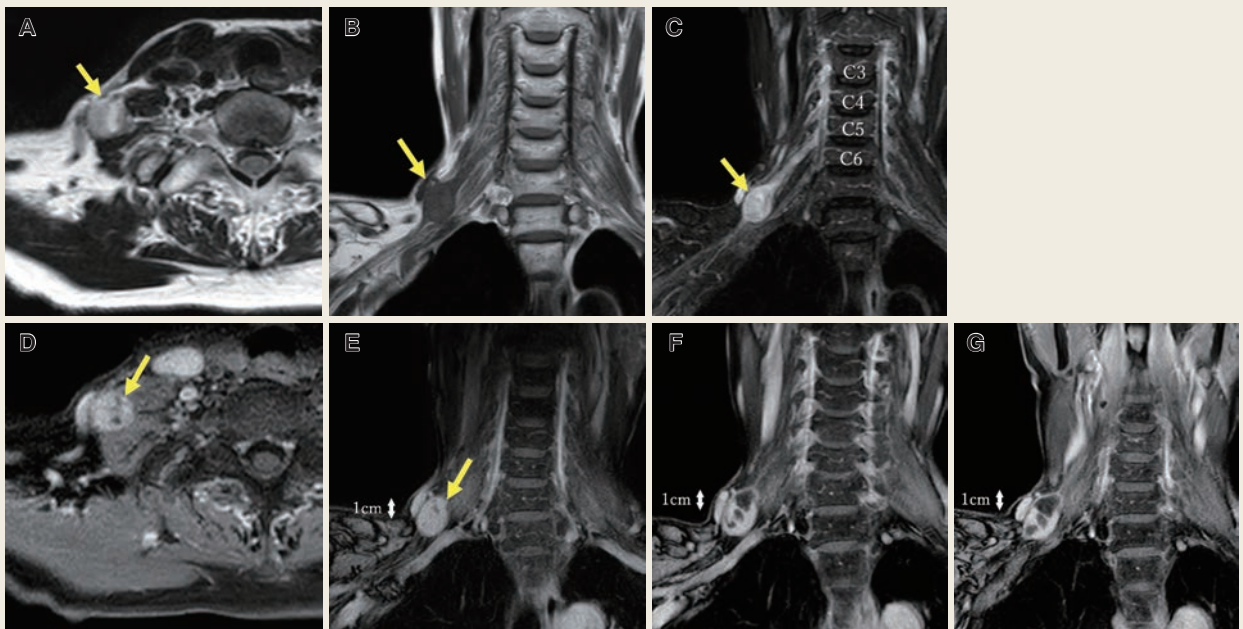
## 1. 緒言

有髄神経は軸索の周囲をシュワン細胞からなる髄鞘で覆われる。この神経線維を神経内膜と呼ばれる膠原線維が覆い、これが複数本集まり神経周膜に覆われることで神経束を形成する。神経束がさらに複数本まとまり、脂肪組織や血管とともに神経上膜に覆われて神経幹となる (Fig. 4A)<sup>1)</sup>。

末梢神経鞘腫は1本の神経線維のシュワン細胞(髄鞘)が腫瘍化したものである。そのため腫瘍の周囲には正常な神経線維があり、その周囲を神経周膜、正常な神経束、さらに神経上膜で覆われていると考えられる (Fig. 4B)<sup>1)</sup>。

腕神経叢神経鞘腫は比較的稀な腫瘍であり、増大すると鎖骨上部に腫瘍を触知し、上肢のしびれ・疼痛・運動障害などを生じることがある<sup>2)</sup>。神経走行が複雑な部位に腫瘍があり、手術においては神経機能の温存が重要とされ、それを目的とした術式として被膜間摘出術が報告されている<sup>1, 2)</sup>。

今回、我々は直接神経刺激運動誘発電位 (direct nerve stimulation-motor evoked potential : Dn-MEP) と経頭蓋刺激 MEP (transcranial stimulation-MEP : Tc-MEP) を併用し被膜間摘出術を行うことで、神経損傷なく腕神経叢神経鞘腫を摘出できた1例を経験したため報告する。



**Fig. 1**

Cervical magnetic resonance imaging (MRI) images at initial examination.

**A** : T2-weighted image. The tumor exhibits low high intensity.

**B** : T1-weighted image. The tumor exhibits high low intensity.

**C** : Short tau inversion recovery (STIR) image. The tumor arises from the superior trunk of the brachial plexus, which originates from the C6 nerve root.

**D, E** : Contrast-enhanced MRI. Heterogeneous contrast enhancement is revealed within the tumor. The tumor size is 2.2 cm.

**F** : Contrast-enhanced MRI on August, X+1. The tumor size is 2.9 cm.

**G** : Contrast-enhanced MRI on February, X+2. The tumor size is 3.0 cm.

## II. 症 例

**患 者**：78歳女性。

**主 訴**：右鎖骨上窩腫瘍。

**現病歴**：X年10月に頸部リンパ節炎を加療した際、右鎖骨上窩に約1.5cmの硬い腫瘍を認めた。感染改善後も腫瘍の形態に変化がなく、同部の圧迫により右上肢に放散するしびれと疼痛を生じ、神経原発性腫瘍が疑われ当科紹介となった。

**初診時神経学的所見**：右鎖骨上部の皮下に約1.5cmの腫瘍があり、同部位に圧痛を認めた。右上肢の拳上でC6神経根支配領域である右前腕橈側にしびれを生じた。徒手筋力検査で筋力低下は認めず、深部腱反射も亢進・減弱は認めなかった。そのほか、神経学的異常所見は認めなかった。

**神経放射線学的所見**：MRIで右頸部にT1低信号・T2高信号の約1.5cmの腫瘍を認めた(Fig. 1A, B)。造影MRIで内部は一部不均一な造影効果を認めた(Fig. 1D, E)。Short tau inversion recovery (STIR)でC6神経根を起源とする上神経幹に腫瘍は存在し(Fig. 1C)、前腕橈側のしびれの症状と局在が一致した。画像所見から腕神経叢神経鞘腫と診断した。

**臨床経過**：症状が軽度であったため経過観察の方針とした。腫瘍は増大傾向を示し、X+1年8月のMRIで嚢胞形成を認めた(Fig. 1F)。X+1年12月には右前腕橈側のしびれ・疼痛の悪化(NRS:7)を認めた(Fig. 1G)。腫瘍の増大と症状の増悪を認め(Fig. 1G)、患者・家族の手術希望もあったためX+2年2月に手術を施行した。

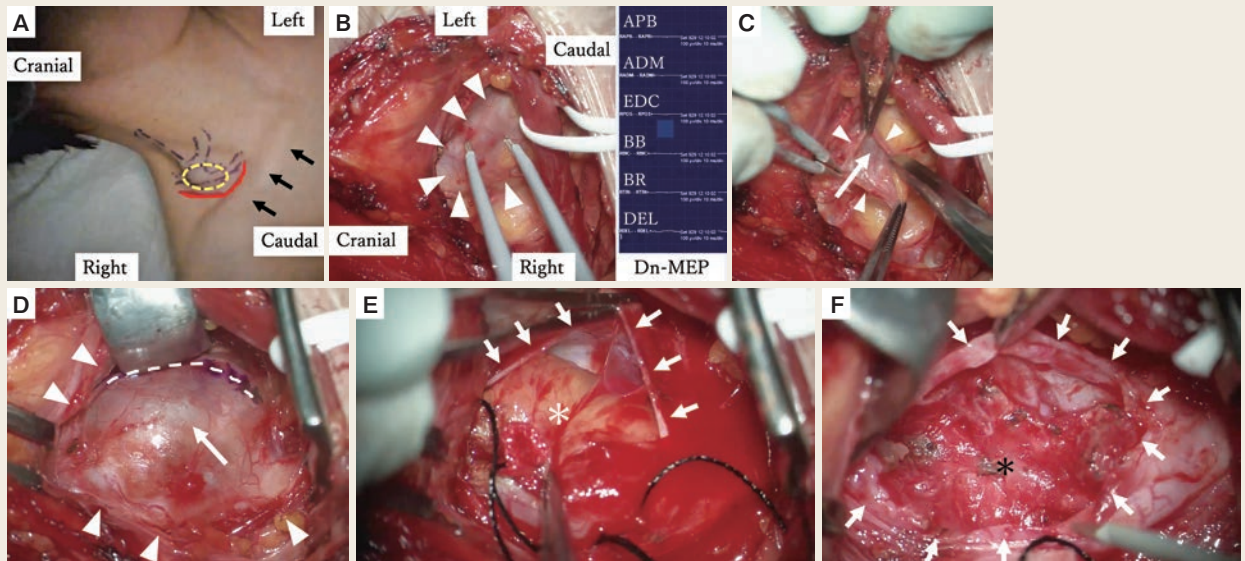
**手術所見**：神経機能温存を目的とし、正常神経走行の確認のためDn-MEP(Bipolar電極)とTc-MEPを使用した。上神経幹の支配域である上

腕二頭筋・腕橈骨筋・三角筋に記録電極を設置し、上神経幹の支配域ではない総指伸筋、母指外転筋、小指外転筋にもポジティブコントロールとして記録電極を設置した。Tc-MEPの刺激電極は頭頂部(Cz)から左に6cmの点に設置した。また感覚神経のモニタリングのため体性感覚誘発電位(somatosensory evoked potential:SEP)を正中神経に設置し、ポジティブコントロールとして尺骨神経にもSEPを設置した。

右鎖骨上に腫瘍尾側をとりまく円弧状の皮膚切開を置き(Fig. 2A)、軟部組織を剥離して腫瘍の存在する上神経幹に到達した。上神経幹の神経上膜を直接刺激しDn-MEPの反応が最も弱い部分を探し(Fig. 2B)、そこから神経上膜を切開した(Fig. 2C)。神経上膜と神経周膜の間を剥離し神経周膜を露出した。同様に、神経周膜上でDn-MEPを確認し、反応が最も弱いところで神経周膜を切開した(Fig. 2D)。神経周膜と腫瘍被膜の間を剥離し(Fig. 2E)、Dn-MEPで正常な運動神経が存在しないと考えられる部分で腫瘍を生検、迅速病理で神経鞘腫の診断を得た。Dn-MEPとTc-MEPを確認しながら正常神経を損傷しないよう腫瘍を摘出した。腫瘍の近位端・遠位端にはDn-MEPで反応を認める部分が存在したため、その部分を避け垂全摘にとどめた。SEPは術中に振幅低下を認めることはなかった。Tc-MEPで問題なく波形が出ることを確認し、手術を終了した(Fig. 2F)。

**病理所見**：出血や浮腫状の変性を伴い、紡錘形細胞が粗密を持って増殖し、verocay bodyを認め神経鞘腫と診断した(Fig. 3A, B)。免疫染色ではS-100陽性であった(Fig. 3C)。

**術後経過**：術前に認めたしびれや疼痛の症状は改善した。術後新たな運動麻痺や感覚障害は認め



**Fig. 2**

Intraoperative findings.

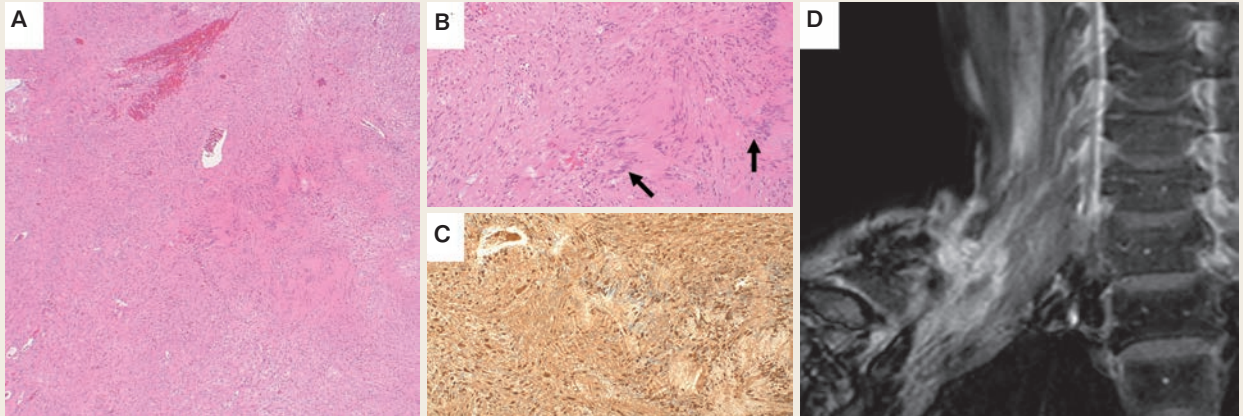
- A** : A skin incision is made above the clavicle (black arrow), as indicated by the red line, with the arrow pointing to the right clavicle. The suspected tumor is marked within the yellow dotted circle. The purple line outlines the vein area, and the skin incision is planned to avoid injury to the vein.
- B** : The tumor covered by the epineurium is exposed (arrowhead). The bipolar is the stimulation electrode and the taped structure was muscle. Unresponsive points are identified by Dn-MEP.  
 APB : abductor pollicis brevis. ADM : abductor digiti minimi. EDC : extensor digitorum communis. BB : biceps branchii. BR : brachioradialis. DEL : deltoid.
- C** : The epineurium is cut along the safe points by scissors. The membrane grasped by forceps is epineurium (arrowhead). The tumor is covered by perineurium (arrow).
- D** : After exposing the perineurium (arrow), we find the safe points using Dn-MEP in the same way as for the epineurium and cut it (white dotted line). The arrowhead points out the epineurium.
- E** : The tumor (white asterisk) is exposed, and the tumor capsule is detached from the perineurium (arrow) .
- F** : Post tumor removal image. The membrane structure (arrow) is identified as the perineurium that surrounding the tumor. The structure like connective tissue (black asterisk) respond Dn-MEP stimulation, indicating it to be endoneurium including normal nerve fibers around the tumor.

なかった。術後のMRI (Fig. 3D) では術後変化と思われる高信号域を認めるものの明らかな造影効果を持つ腫瘍は認めず、腫瘍の亜全摘を確認した。術後半年のMRIでも腫瘍の再発は認めていない。

### III. 考 察

末梢神経鞘腫摘出において正常な神経線維を極力温存し、真の腫瘍を全摘出する目的で考案された術式が被膜間摘出術であり、橋本によって初めて報告された<sup>1)</sup>。これより以前は腫瘍被膜の内側

で腫瘍実質のみを摘出する核出術が多く行われてきたが、核出術では腫瘍被膜とそれに接した腫瘍細胞が残存する。頸部神経鞘腫は約4%が悪性である可能性が示唆され、その場合は腫瘍細胞の残存による再発のリスクが否定できず、全摘出が望ましい<sup>1, 3)</sup>。一方で、起源神経も含めた摘出を行うと腫瘍を全摘出することは可能であるが起源神経の機能は脱落し、たとえ神経縫合や神経移植を行っても術後神経障害の残存が危惧される<sup>1, 3, 4)</sup>。神経鞘腫摘出術は腫瘍摘出術と機能的手術の両側

**Fig. 3**

Histopathological findings of the tumor. Hematoxylin and eosin (HE) staining ( $\times 20$ ) (A) and HE staining ( $\times 100$ ) (B) reveals spindle-shaped cells proliferating sparsely and Verocay bodies (arrows). Immunohistochemical analysis demonstrates cells positive for S100 (C).

Contrast-enhanced MRI imaging post-surgery reveals the subtotal removal of the tumor (D).

面を持つため、可能な限り腫瘍の残存なく神経機能を温存した手術が理想であり、被膜間摘出は腫瘍の摘出率と機能温存を両立するよい術式である。本術式について報告・検討した論文は複数存在するが、シェーマを用いて説明したものは我々が渉猟し得た限りでは1本のみであった<sup>4)</sup>。本術式のコンセプトは神経上膜・神経周膜を切開し、神経周膜と腫瘍被膜との間で腫瘍を剥離、全摘出するというものである (Fig. 4C)<sup>1)</sup>。

今回腫瘍摘出後には Fig. 2F のような膜様構造物が残ったが、矢印は腫瘍を包んでいた神経周膜であり、\*の神経周膜に附着した構造物は腫瘍により圧排され非薄化した正常神経線維を含む神経内膜であると術中に考察し手術を行った (Fig. 2F)。

末梢神経鞘腫摘出術を神経損傷なく施行するためには、神経モニタリングの併用が重要となる<sup>2)</sup>。神経モニタリングを行う際に刺激部位より中枢側を損傷していた場合、直接の刺激は末梢には伝わるが、脳からの刺激は伝わらない状態となる (Fig. 4D)。そのため腫瘍の近位部を直接電気刺激

し、腫瘍の遠位部でモニタリングすることが推奨されている<sup>5)</sup>。しかし腕神経叢の場合、神経走行が複雑なため腫瘍の近位部を捉えることが困難な場合もあり、そういった場合には Tc-MEP が有用と報告されている<sup>2)</sup>。

本症例では術中腫瘍の近位部を捉えることは困難ではなかったものの、Tc-MEPを併用することで確実に神経損傷がないこと、もしくはたとえ正常神経に損傷があったとしても粗大な運動障害を来していないことを確認しながら腫瘍切除を進めることができた。また、腫瘍の近位部を露出できるかどうかは術中所見に依存することが多いため、腫瘍の近位部を露出することが困難と強く予想されない場合でも Tc-MEP を併用しておくことは、安全に腫瘍を切除する観点から有用であると考えられる。また同様に SEP についてもモニタリングを行うことで、感覚神経の損傷がないことを確認しながら手技を行うことができた。結果として術後に新たな感覚障害を認めることもなかった。SEP についてもモニタリング下で手技を行

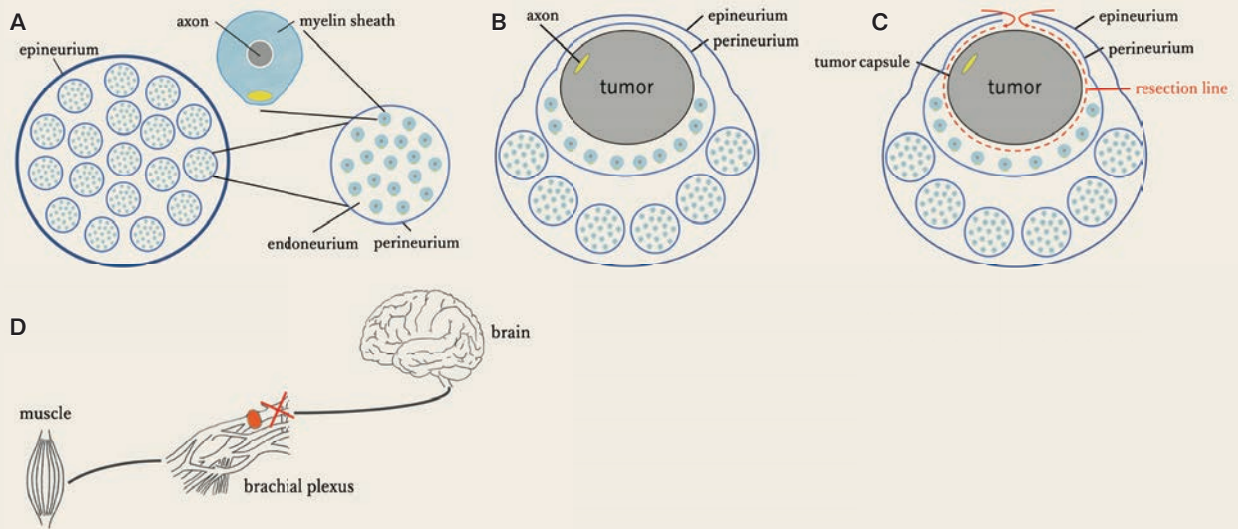


Fig. 4

- A: Schema depicting the normal anatomy of a peripheral nerve (myelinated nerve), with multiple myelinated nerve fibers coming together to form fascicles and are surrounded by perineurium, collectively covered by epineurium. Endoneurium is connective tissue which surrounds each nerve fibers.
- B: Schema illustrating a peripheral nerve schwannoma within the nerve.
- C: Schema of the inter-capsular resection concept, depicting the tumor being resected between the tumor capsule and perineurium (red dotted line).
- D: Schema depicting nerve pathways from the brain to the muscle, with the orange region representing the schwannoma. If the nerve is injured proximal to the tumor, stimulation of Dn-MEP at the tumor can reach the muscle, but the signal from brain is not transmitted to the muscle.

うことが望ましいと我々は考える。

また、神経モニタリングにおいて Dn-MEP の刺激強度は議論になる点である、今回 Dn-MEP の神経刺激は上神経幹に到達した時点から手術終了まで 1 mA の強さで行った。直接神経刺激の際は 0.5 mA 以下で刺激を行うことが一般的とされるが<sup>6)</sup>、今回は腫瘍摘出に伴う神経損傷がないことを第一目標とし、安全域を確保するために 1 mA で刺激を行った。

## IV. 結 語

腕神経叢神経鞘腫摘出術において被膜間摘出術により神経機能を温存しながら腫瘍の垂全摘出を行うことができた。本術式を行うにあたっては末梢神経の解剖を十分に理解することが必要である。

また本術式では神経モニタリングの併用が必要となるが、Dn-MEP と Tc-MEP の併用は解剖学的構造が複雑になり得る本術式では神経機能の温存に有用である可能性が示唆された。

### COI

本論文の投稿に際して開示すべきCOIはありません。また、本論文の発表に関して患者の同意を得ています。

## 文献

---

- 1) 橋本 省: 頸部神経鞘腫に対する被膜間摘出術のコンセプト. 頭頸部外科 17: 91-2, 2007
- 2) 権藤学司, ほか: 腕神経叢部神経鞘腫6例の手術経験. 脊髄外科 29, 173-8, 2015
- 3) Valentino J, et al: Expected neurologic outcomes for surgical treatment of cervical neurilemmomas. Laryngoscope 108: 1009-13, 1998
- 4) Kuroiwa M, et al: Inter-capsular resection of cervical vagus nerve schwannoma. J Clin Neurosci 54: 161-4, 2018
- 5) Kwok K, et al: Resection of a benign brachial plexus nerve sheath tumor using intraoperative electrophysiological monitoring. Neurosurgery 60: 316-20; discussion 320-1, 2007
- 6) 安藤宗治: 直接神経刺激・運動誘発電位 (Dn-MEP), 76-9 (日本臨床神経生理学学会 編: 術中脳脊髄モニタリングの指針2022, 診断と治療社, 東京, 2022)

# Intercapsular resection with direct nerve stimulation-motor evoked potential and transcranial stimulation-motor evoked potential for brachial plexus schwannoma: A case report

Takayuki KAKIMOTO <sup>1)</sup>, Kotaro OGIHARA <sup>1,2)</sup>, Yasuaki HIROSE <sup>1)</sup>, Fukiko BABA <sup>1)</sup>,  
Kazuhiko NISHI <sup>1)</sup>, Hisakazu ITAMI <sup>1)</sup>, Shinji OTSUKA <sup>1)</sup>, Noboru KUSAKA <sup>1)</sup>,  
Tsukasa NISHIURA <sup>1,2)</sup>, Takahiro HAYASHI <sup>2,3)</sup>

1) Department of Neurosurgery, National Hospital Organization Iwakuni Clinical Center

2) Spinal center, National Hospital Organization Iwakuni Clinical Center

3) Department of Orthopaedic Surgery, National Hospital Organization Iwakuni Clinical Center

A 78-year-old female was referred to our department because of a mass in the right supraclavicular fossa, which caused numbness and pain radiating to the right upper extremity with suspicion of a primary nerve tumor. Brachial plexus schwannoma was suspected based on imaging findings. Intercapsular resection was performed due to tumor growth and worsening numbness, resulting in subtotal tumor removal, improved numbness, and no neurological dysfunction. Brachial plexus schwannoma is a rare tumor that can cause numbness, pain, and paralysis of upper extremities, sometimes necessitating surgical resection. Given its anatomically complex location, preserving neurological function is important. The intercapsular resection technique was designed to remove the schwannoma while preserving normal nerves as much as possible in the removal of peripheral nerve schwannomas, and is safely achievable with a good understanding of the anatomy. Furthermore, it is suggested that neurological damage can be minimized by using direct nerve stimulation-motor evoked potential and transcranial stimulation-motor evoked potential as neurophysiological monitoring.