

Leptomeningeal Anastomosis

東 登志夫 Toshio Higashi

福岡大学医学部 脳神経外科

Department of Neurosurgery, Faculty of Medicine, Fukuoka University

Keywords, leptomeningeal anastomosis, ischemic stroke, collateral circulation

Leptomeningeal anastomosis (LMA)とは、以下の様に定義される,
“pial artery that is a connecting branch between two major cerebral arteries supplying two different cortical territories” (2つの異なる皮質領域を栄養するmajor cerebral artery の末梢を連絡するpial artery) ¹⁾. これは脊髄周囲を取り囲むpial networkであるvasa coronaと相同性homology を示している.

最近経験した、LMAが関与すると考えられた臨床例を提示する.

症例1, 67歳女性. 主訴, 意識障害, 右片麻痺, 失語. 高血圧, 糖尿病の既往あり. 心臓血管外科にてCABG施行. 術後19日めに病棟リハビリ室から帰室中転倒した. その際, 看護師が意識障害に気がついた. 術前より両側内頸動脈閉塞を指摘されていた. 両側内頸動脈系の血流は, 後交通動脈および, 後大脳動脈からのLMAにより保たれていたと考えられる. 左後大脳動脈の一過性の閉塞により, 左側のLMAによる側副血行が低下し, 右片麻痺や失語といった左中大脳動脈灌流域の症状を呈したと考えられた. 保存的加療により, 麻痺および失語は軽快傾向となった (Fig. 1A-D).

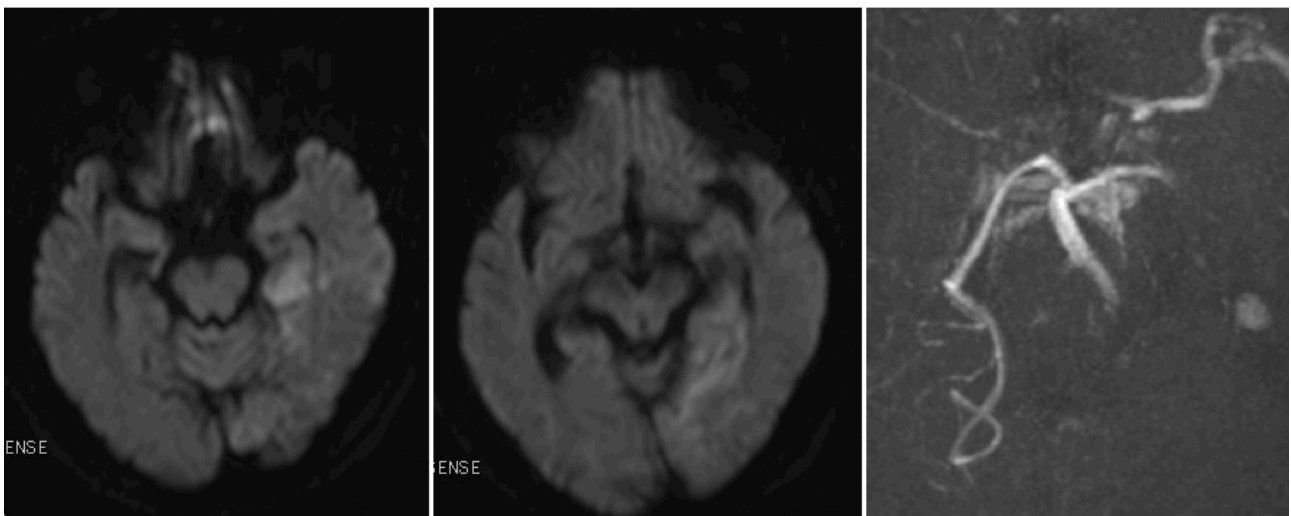


Fig.1A 症例1. 発症時のMRI (左, 中), MRA (右). MRI/DWIにて左後大脳動脈領域に新鮮虚血性病変を認める. MRAでは左後大脳動脈の描出が不良.

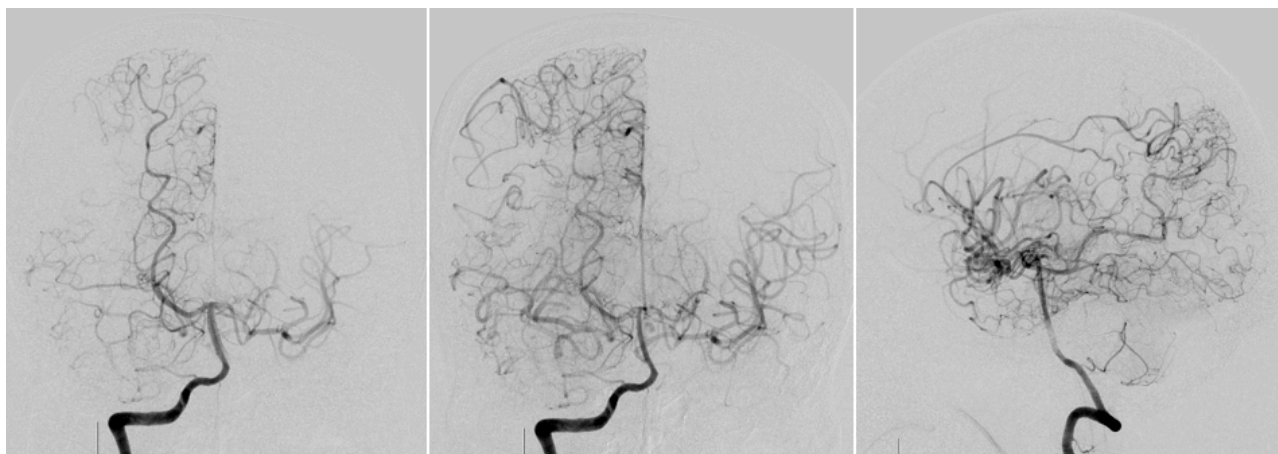


Fig.1B 発症時右椎骨動脈撮影，動脈相正面像（左），動脈相後期正面像（中），同側面像（左）．左後大脳動脈は部分再開通しているが，末梢の描出はやや不良．両側後交通動脈，またLMAを介した側副血行により中大脳動脈の描出を認める．

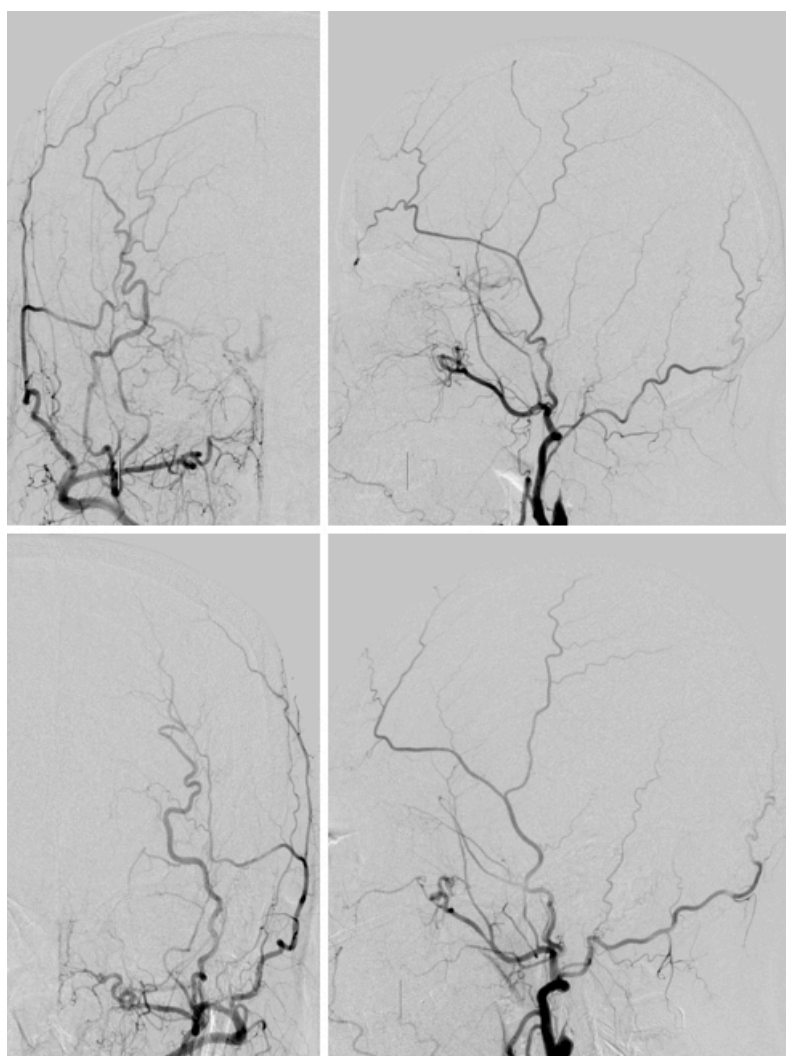


Fig.1C 発症時脳血管撮影，右総頸動脈撮影正面像（上左），同側面像（上右），左総頸動脈撮影正面像（下右），同側面像（下左）．両側内頸動脈は分岐直後に閉塞している．



Fig.1D 発症から4ヶ月後のMRI, MRA. MRI, FLAIR像（左, 中）, MRA（右）. 左後大脳動脈灌流域に陳旧性脳梗塞を認める. 左後大脳動脈は再開通している.

症例2, 50歳男性. 主訴, 一過性右上肢感覚障害, 麻痺. 特記すべき既往歴はない. 会議中に右上肢のしびれ, 脱力を生じた. 症状は1分程度で軽快した. 4ヶ月後にプールで泳いだ後, 同様の症状を生じ転倒した. 近医のMRIで左放線冠に虚血性病変, 左中大脳動脈閉塞を疑われ, 精査目的で当科紹介となった. 脳血管撮影では左中大脳動脈M1部の高度閉塞性病変を認めた. 右側内頸動脈系に明らかな異常を認めず, 片側もやもや病と診断された. 左前大脳動脈および後大脳動脈から, LMAを介した側副血行を認めた. SPECTでは安静時脳血流に明らかな左右差を認めず, 保存的加療の方針となった (Fig.2 A,B).

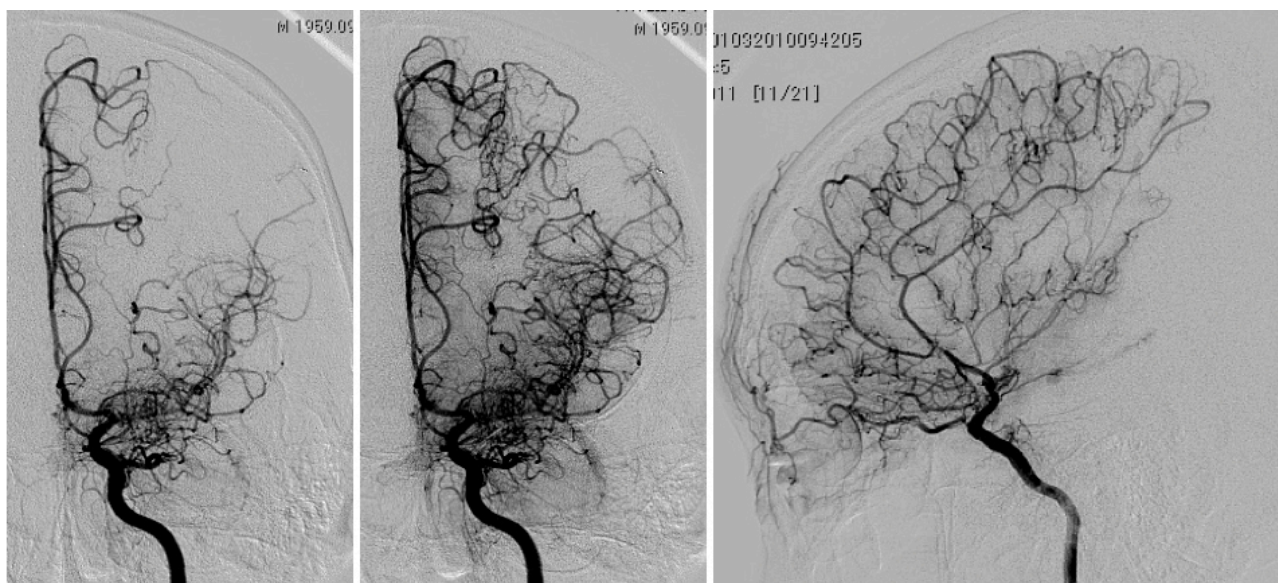


Fig.2A 症例2. 左内頸動脈撮影動脈相正面像（左）, 動脈相後期正面像（中）, 同側面像（右）. 左中大脳動脈M1部に高度閉塞性病変を認める. 前大脳動脈からLMAを介して中大脳動脈灌流域への側副血行を認める.

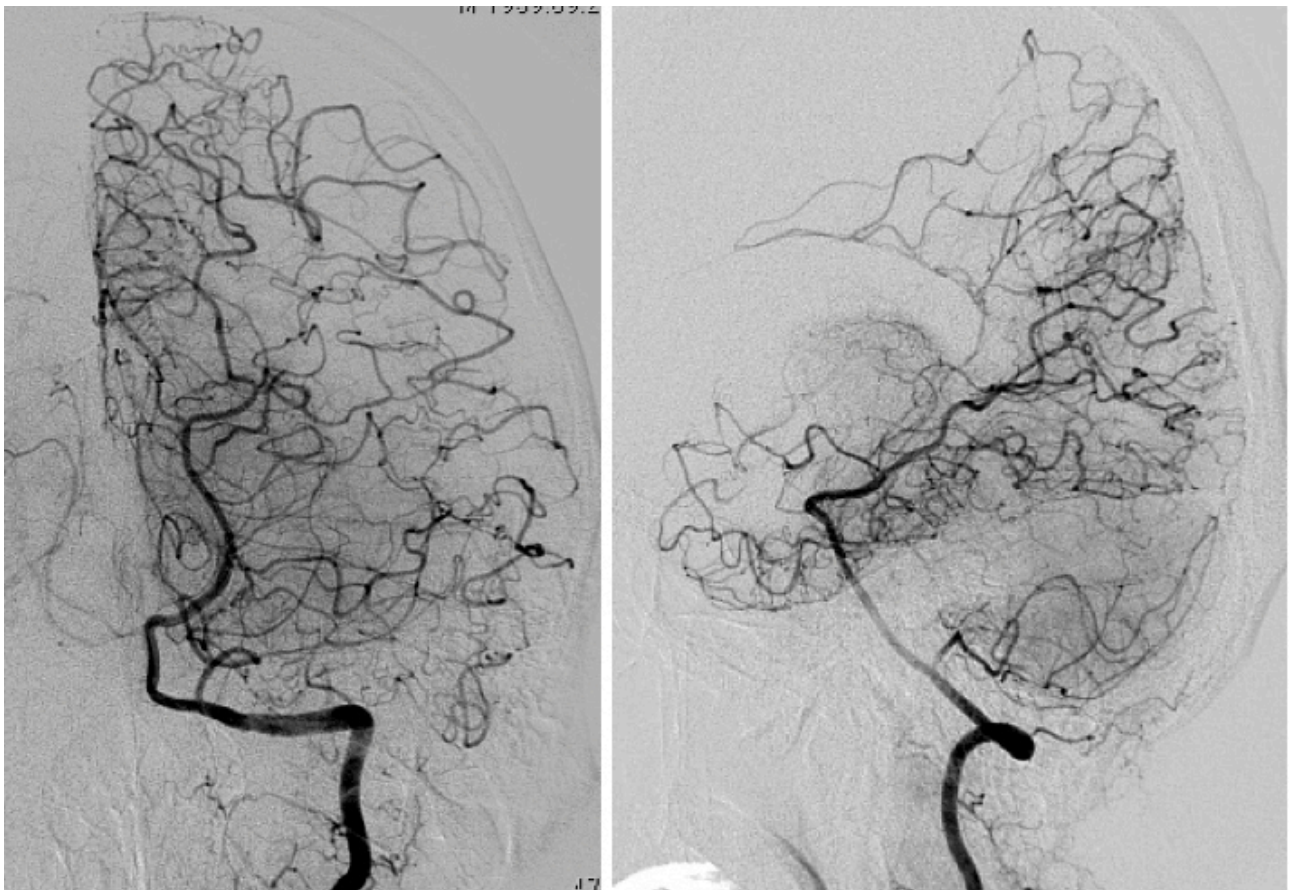


Fig.2B 左椎骨動脈撮影正面像（左），側面像（右）．後大脳動脈からLMAを介して中大脳動脈灌流域への側副血行を認める．

症例3. 52歳女性. 右後大脳動脈の紡錘状動脈瘤. フォローアップ中のMRIで増大を指摘され, 治療希望にて入院となった. 右後頭動脈から右後大脳動脈皮質枝へのバイパス術後, 動脈瘤および母血管をコイルにて閉塞する方針で治療を行った. バイパスは右中大脳動脈角回動脈の末梢へ吻合されていたが, 母血管閉塞後, LMAを介して右後大脳動脈末梢およびコイル塞栓部の直前まで描出された. 術直後に一過性の左同名半盲を認めたが, 保存的加療により症状は軽快した (Fig.3 A,B).

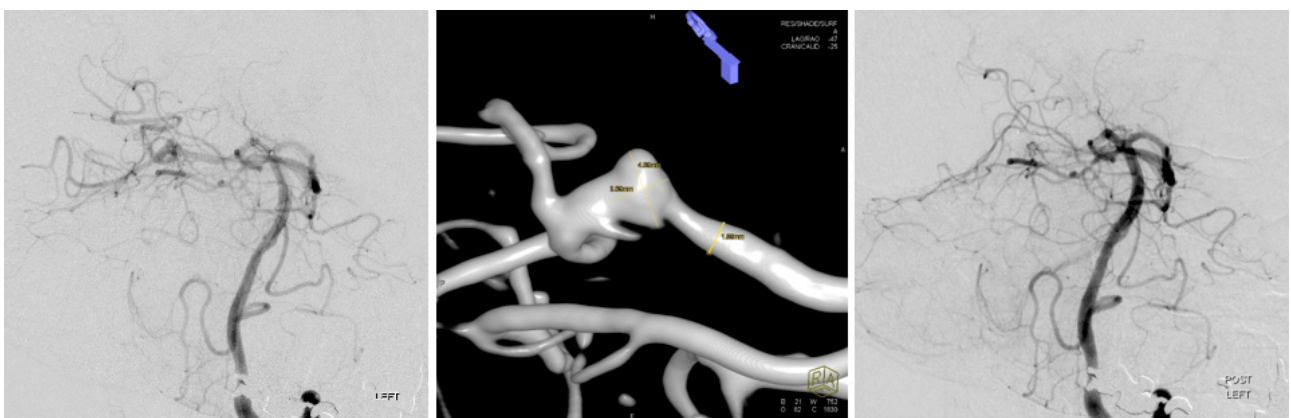


Fig.3A 症例3. 左椎骨動脈撮影右前斜位術前（左），3D-DSA術前（中），右前斜位術後（右）．右後大脳動脈ambient segmentの動脈瘤および母血管をコイルで閉塞した．

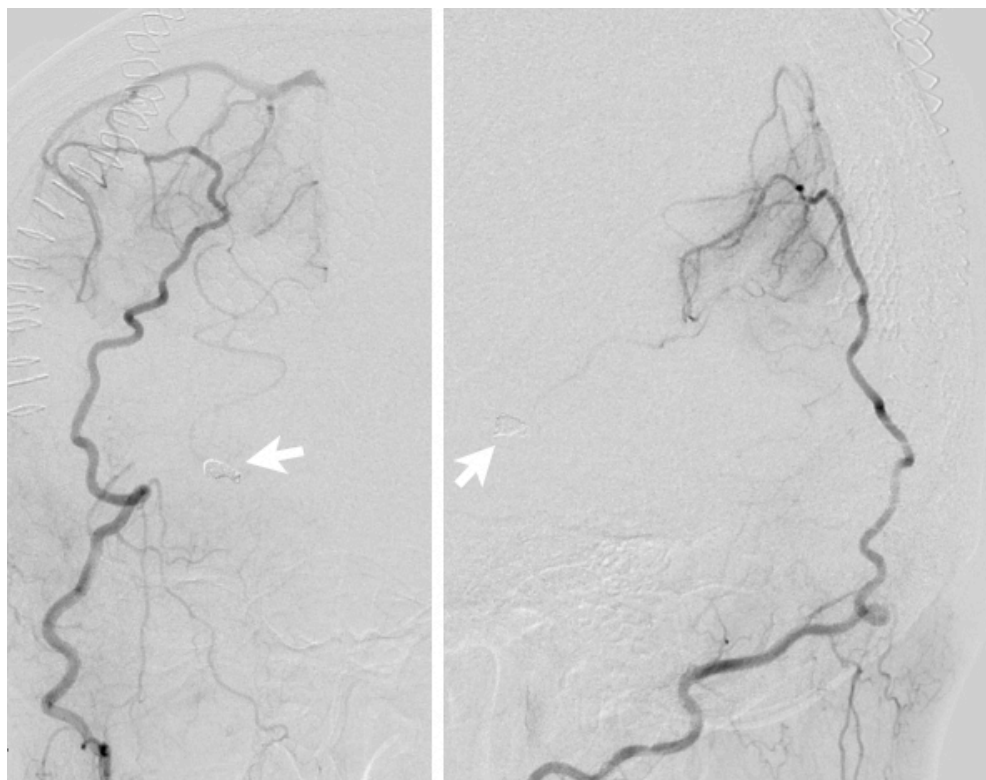


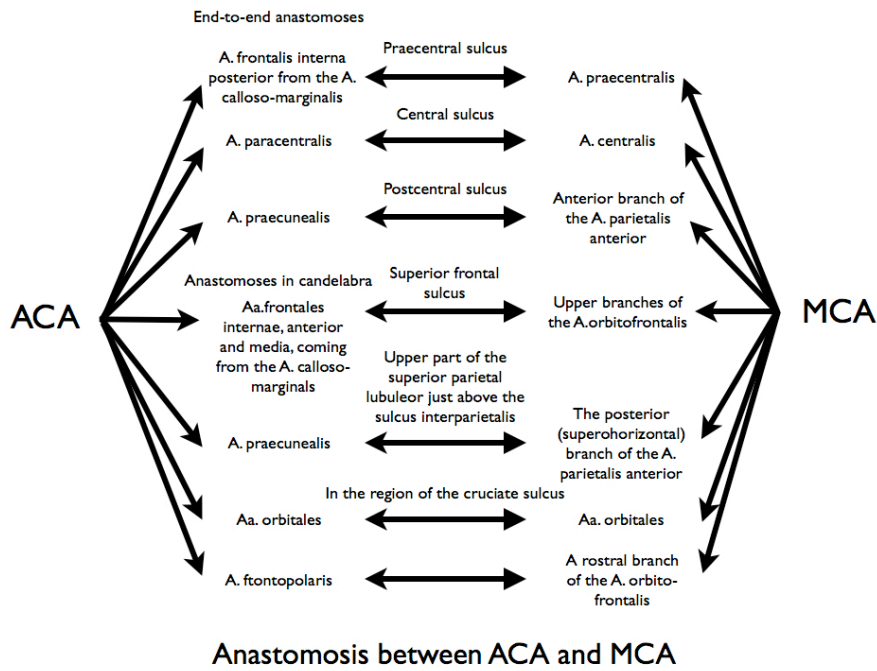
Fig.3B 右後頭動脈選択的撮影正面像
(左),側面像
(右). 後頭動脈バイパスは角回動脈末梢に吻合されているが, LMA を介して右後大脳動脈末梢およびコイル塞栓部の遠位端まで描出される. 矢印は塞栓後コイルを示す.

LMAに関しては、古くから解剖学的あるいは機能的側面から多くの議論があり、いまだに解決を得られていない部分もある。虚血性脳血管障害の臨床においては、そのメカニズムの理解に重要であり、特に“penumbra”領域²⁾の生存に大きく関わっていると考えられている。同じ中大脳動脈閉塞においても、その症候や脳梗塞の程度は多岐に富んでいる。この多様性は、LMAの個人差によると言われているが明確な証明はされていない¹⁾。

歴史的には、Thomas Willisの“Cerebri Anatome”(1684)に最初の記載があり³⁾、他にも18世紀にすでにいくつかの記載がある。最初の明確な記載は1874年のHuebnerによるものであった。それ以前、大脳皮質枝はそれぞれがend arteryと考えられていた。Huebnerは、ACA, MCA, PCAのそれぞれの灌流域を同定する目的で各血管に色素を注入した。彼の予想に反して、Willis動脈輪での吻合を欠いているにも関わらず、全脳の血管に色素がゆき渡った。この実験の結果から、彼はLMAの存在とその代償能を確信した⁴⁾。同時代の解剖学者はあまり興味を示さず、あるいは解剖学的に存在することを認めるも、生理的機能があるとは考えなかった。1925年、Faylはhuman cadaver脳のMCAにmercuryを注入した。X線撮影により、mercuryは全脳の動脈枝にゆき渡っており、Huebnerの実験の追試となった。彼はLMAを“important points of fusion” in the border zones of the 3 cerebral arteriesと考えた(Cobbにより引用された)⁵⁾。その後PfeiferとCobbは毛細血管の吻合について検討し、大脳の血管ネットワークは連続的であることを観察し、毛細血管床におけるarteriole(細動脈)の吻合の方が主幹動脈における吻合よりも豊富であると結論した⁵⁾。Vander EeckenらはLMAの最初の包括的な解剖学的報告を行った。彼らはSchlesinger lead solutionを20 human cadaver brainに注入し、ルーペによって詳細に動脈を検討した⁶⁾(Fig. 4)。後に彼らによる解剖学的検討では、最大1mm径の吻合が観察されている。

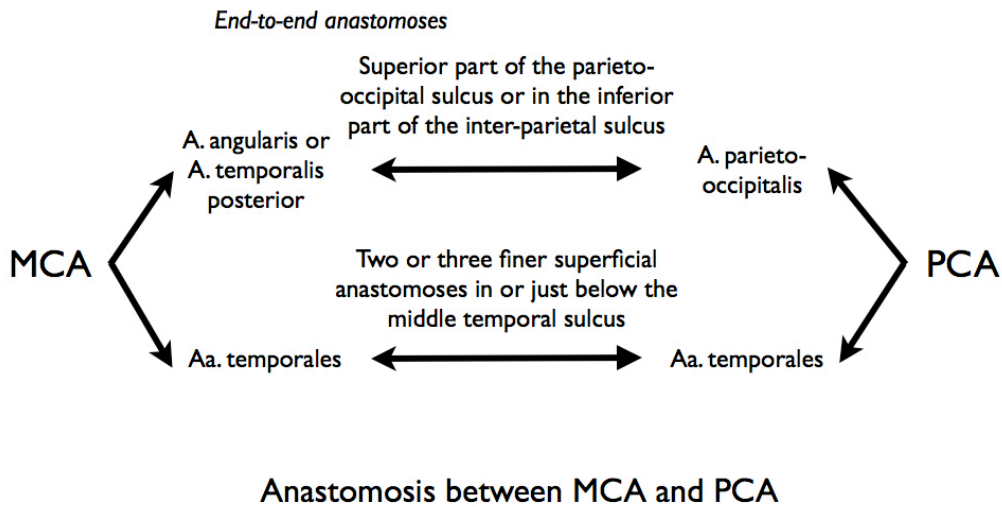
1800年代にはLMAは解剖学的には存在するが、その機能は不明という意見が中心であった。これは脳梗塞が閉塞血管の末梢領域に限局的に生じること、またLMAの径が機能を持つには小さすぎると考えられたことによる。1900年代に入り、前述のCobbやVander Edckenらの研究によって、その代償機能が考えられるようになった。De Sezelは脳梗塞の予後に関する血圧の影響を検討した。脳梗塞後あるいは脳梗塞のないcadaver脳において、異なる圧力で液体を注入し、X線上でその動態を検討した。ACAやPCAに注入された液体は、まず各々の血管の灌流域を満たした後、MCAの分枝を逆行性にその起始部まで満たすことを確認した⁷⁾。その後脳血管撮影によってLMAの存在が確認されるようになった。その後も脳主幹動脈閉塞等の脳血

管障害における脳血管撮影所見が多く報告されたが, LMAの代償機能に関しての意見はまちまちであった
1).



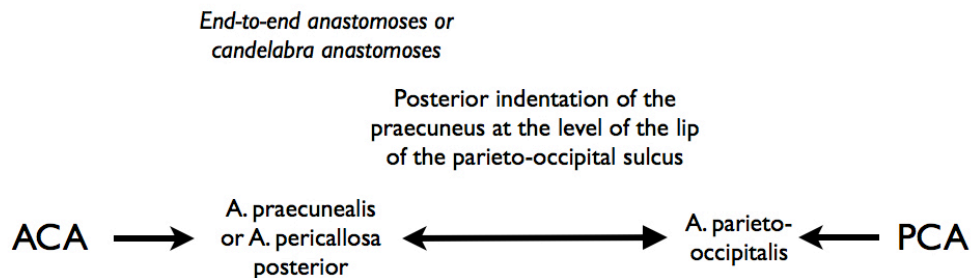
Anastomosis between ACA and MCA

Fig.4A



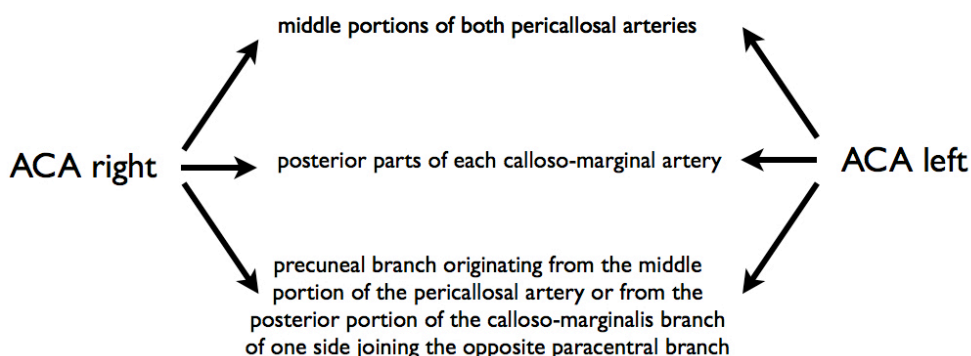
Anastomosis between MCA and PCA

Fig.4B



Anastomosis between ACA and PCA

Fig.4C



Anastomosis between ACAs

Fig.4D

Fig.4A, B, C, D Vander Eecken and Adamsによるleptomeningeal anastomosisの解剖学的記載（文献1より一部改変）。彼らがLMAの最初の包括的解剖学的報告を行った。彼らはSchlesinger lead solutionを20 human cadaver brainに注入し、ルーペによって詳細に動脈を検討した⁶⁾。

1980年代以降、新しい画像診断技術によってLMAの機能が検討される様になった。Fukuyamaらは頸動脈閉塞患者におけるSPECTと脳血管撮影所見を比較検討し、脳灌流画像の有用性を示した⁸⁾。また主幹動脈閉塞時の大脳皮質は側副血流を主にLMAから受けており、その重要性を明らかにした。その後もLMAによるvascular hemodynamicsを示す報告が認められた⁹⁻¹¹⁾。虚血性脳血管障害におけるLMAの役割として、主幹動脈閉塞性病変においてはある程度のcortical perfusionを担い、治療におけるtime windowを広げているとする報告も認められる¹²⁻¹⁴⁾。しかしながら、LMAの血流代償機能に関してはいまだコンセンサスは得られておらず、特に今後の機能面での検討が必要である。

他の脳血管障害症例と関連して、LMAの存在や機能が示された。Viñuelaらは、AVMをfeeder occlusionした際のフォローアップ脳血管撮影において、LMAを介したnidusの再造影所見を示した¹⁵⁾。またgiant aneurysmの症例ではdistal MCA branchの血流が不足するために、LMAが発達しており、その治療において主幹動脈を閉塞した際の血流代償機能が示された^{16),17)}。もやもや病におけるLMAの診断や役割については多くの報告がある¹⁸⁻²²⁾。Ohtaらは小児もやもや病患者において、造影MRIにおけるdiffuse leptomeningeal enhancementを、「ivy sign」と名づけ、pial network による血流の可能性を示した²³⁾。これは後にFLAIR像でも報告される様になった。

動物実験や臨床研究から、LMAの機能に影響する因子がわかってきた。LMAの血流代償機能に影響する

因子は、1. Variability in diameter and number of LMA²⁴), 2. Systemic blood pressure^{7,25, 26}), 3. Vascular dynamics^{8,16}), 4. Age of patient^{27,28})と考えられる。またLMAは虚血性脳血管障害における penumbra領域の結果に重要な役割を担っていることが認められた。Symonは動物実験において、閉塞したMCAの灌流域は、それぞれの血管の圧勾配によって、ACAやPCAによる血流に占められてゆく(shift phenomenon)ことを示した²⁹)。HintonらはMCA狭窄の臨床例において、LMAを介したACAやPCAからの逆行性血流によって、いわゆるborder zoneのshiftが起こることを示唆した³⁰)。

LMAの解剖学的な存在は、脳血管撮影や各種灌流画像上から疑いの余地はないと言える。また、もやもや病等の慢性閉塞性疾患におけるその血流代償機能は臨床的に無視することはできない。今後の課題として、急性期の閉塞性脳血管障害時におけるLMAの役割、また個々の症例におけるその血流代償機能の予測に関して総括的な研究が期待される。

References

1. Brozici M. et al., Anatomy and functionality of leptomeningeal anastomoses: A review. *Stroke* 34:2750-2762, 2003.
2. Astrup J. et al., Thresholds in cerebral ischemia: the ischemic penumbra. *Stroke* 12:723-725, 1981.
3. Willis T. *Cerebri Anatome*. London, UK, 1684.
4. Heubner O. *Die luetischen Erkrankungen der Hirnarterien*. Leipzig, Germany. FC Vogel:170-214, 1874(No.1より引用).
5. Cobb S. The cerebral circulation, XIII: the question of "end arteries" of the brain and the mechanism of infarction. *Arch Neurol Psychiatr* 25:273-280, 1931.
6. Vander Eecken HM. et al., The anatomy and functional significance of the meningeal arterial anastomoses of the human brain. *J Neuropathol Exp Neurol* 12:132-157, 1953.
7. De Seze S. *Pression artérielle et ramollissement cerebral: Recherches cliniques physiopathologiques et therapeutiques*. Paris, France, 1931.(文献1より引用).
8. Fukuyama H. et al., Krypton-81m single photon emission tomography and the collateral circulation in carotid occlusion: the role of the circle of Willis and leptomeningeal anastomoses. *J Neurol* 230:7-17, 1983.
9. Adams HP. et al., Middle cerebral artery occlusion as a cause of isolated subcortical infarction. *Stroke* 14:948-952, 1983.
10. Hasegawa Y. et al., Sequential change of haemodynamic reserve in patients with major cerebral artery occlusion or severe stenosis. *Neuroradiology* 43:15-21, 1992.
11. Naritomi H. et al., Effect of chronic middle cerebral artery stenosis on the local cerebral hemodynamics. *Stroke* 16:214-219, 1985.
12. Ringelstein EB. et al., Type and extent of the hemispheric brain infarctions and clinical outcome in early and delayed middle cerebral artery recanalization. *Neurology* 42:289-298, 1992.
13. Na DG. et al., Acute occlusion of the middle cerebral artery: early evaluation with triphasic helical CT: preliminary results. *Radiology* 207:113-122, 1998.
14. Chaela JA. et al., Magnetic resonance imaging in acute ischemic stroke using continuous arterial spin labeling. *Stroke* 31:680-687, 2000.
15. Viñuela F. et al., Angiographic follow-up of large cerebral AVMs incompletely embolized with isobutyl-2-cyanoacrylate. *AJNR Am J Neuroradiol* 7:919-925, 1986.
16. Choksey MS. et al., Cortical thermal clearance monitoring in surgery for a giant middle cerebral artery aneurysm. *Br J Neurosurg* 7:673-676, 1993.
17. Drake CG. et al., Hunterian proximal arterial occlusion for giant aneurysms of the carotid circulation. *J Neurosurg* 81:656-665, 1994.

18. Takahashi M. et al., Computed tomography of moyamoya disease: demonstration of occluded arteries and collateral vessels as important diagnostic signs. *Radiology* 134:671-676, 1980.
19. Takahashi M. Magnification angiography in moyamoya disease: new observations on collateral vessels. *Radiology* 136:379-386, 1980.
20. Yamada I. et al., Moyamoya disease: diagnosis with three-dimensional time-of-flight MR angiography. *Radiology* 184:773-778, 1992.
21. Yamada I. et al., Moyamoya disease: diagnostic accuracy of MRI. *Neuroradiology* 37:356-361, 1995.
22. Iwama T. et al., Predictability of extracranial/intracranial bypass function : a retrospective study of patients with occlusive cerebrovascular disease. *Neurosurgery* 40:53-60, 1997.
23. Ohta T, et al: Diffuse leptomeningeal enhancement, “ivy sign” in magnetic resonance images of moyamoya disease in childhood: case report. *Neurosurgery* 37:1009-1012, 1995.
24. Fields WS. et al., Collateral circulation in cerebrovascular disease. In *Handbook of clinical neurology*, Vol.11. New York, NY, Elsevier, p168-182, 1972.
25. Symon L. et al., Cerebral arterial pressure changes and development of leptomeningeal collateral circulation. *Neurology* 13:237-250, 1963.
26. Edwards EA. Scope and limitations of collateral circulation. *Arch Surg* 119:761-765, 1984.
27. Berry RG. Discussion of “collateral circulation of the brain.” *Neurology (Minn)* 11:20-22, 1961.
28. Lascelles RG. et al., Occlusion of the middle cerebral artery. *Brain* 88:85-96, 1965.
29. Symon L. Studies of leptomeningeal collateral circulation in *Macacus rhesus*. *J Physiol* 159:68-86, 1961.
30. Hinton RC. et al., Symptomatic middle cerebral artery stenosis. *Ann Neurol* 5:152-157, 1979