症例報告

透析シャント肢側の腕頭静脈閉塞による頭蓋内静脈逆流にて急性に頭痛を生じた1例

西村　優佑[1)2)*]　今井　啓輔[1)]　濱中　正嗣[1)]
山﨑　英一[1)3)]　中ノ内恒如[4)]　木村　雅喜[5)]

要旨：症例は血液透析中の72歳男性．後頭部の頭痛を急性発症し，同部に血管雑音が聴取された．頭部MRIで頭蓋内出血はなく，頭部MRAで左横静脈洞－S状静脈洞（transvers-sigmoid; T-S）にかけて異常信号をみとめた．入院後も頭痛は持続し，血管造影にて左T-S周囲のシャントはなかったが，左上肢内シャント部造影にて左腕頭静脈（brachiocephalic vein; BCV）・内頸静脈の閉塞と左T-Sへの頭蓋内静脈逆流をみとめた．内シャント肢側の左BCV閉塞に起因する頭蓋内圧亢進による頭痛と診断し同閉塞部位を血管拡張術で再開通した．術直後から頭蓋内静脈逆流は低減し頭痛も消失した．透析患者に急性発症する頭痛の原因としてBCV閉塞による頭蓋内静脈逆流も念頭に置くべきである．

（臨床神経 2020;60:620-626）
Key words：頭痛，血液透析，腕頭静脈閉塞，頭蓋内静脈逆流，経皮的血管拡張術

はじめに

血液透析例に生じる頭痛は，国際頭痛分類第3版によると二次性頭痛の「ホメオスターシス障害による頭痛」における「10.2透析頭痛」が一般的である[1)]．一方，血液透析例の約30％ではシャント肢側の上大静脈や腕頭静脈（brachiocephalic vein; BCV）などの中心静脈の閉塞を生じ，そのような例では血管造影検査にて頸静脈逆流をみとめることがある[2)]．今回我々は急性に頭痛を発症し，内シャント肢側BCV閉塞による頭蓋内静脈逆流がその原因として疑われた透析患者の1例を経験した．硬膜動静脈瘻との鑑別を含め，内シャント肢側BCV閉塞による頭蓋内静脈逆流に関連した頭痛について文献的考察を加え報告する．

症　例

症例：72歳，男性
主訴：突然の後頭部痛
既往歴：外傷性くも膜下出血，症候性てんかん，慢性硬膜下血腫，末期腎不全（透析歴7年；左上肢シャントを用いて週3回の維持透析中），高血圧症．
家族歴：特記事項なし．
現病歴：2017年11月某日14時頃，法事の昼食後に店を出たところで，突然後頭部痛が出現し動けなくなったため，救急搬送された．
入院時一般身体所見：血圧129/60 mmHg，脈拍数105回/分・整，体温36.5℃．眼球結膜充血や眼球突出はなかったが，左後頸部の血管雑音が聴取された．シャント側の左上腕の腫脹や同側の手指のチアノーゼはみとめず，左橈骨動脈の拍動は良好に触知された．その他，頸部や胸腹部に異常はなかった．
神経学的所見：意識は清明で，失語・失行・失認はみとめなかった．脳神経系では両側視力は正常，瞳孔は左右3 mm同大，対光反射は迅速，眼球は正中位で眼球運動制限はなかった．四肢筋力や表在・深部感覚，協調運動は正常であった．四肢の深部腱反射と姿勢・歩行に異常はなかった．
検査所見：入院時の血液検査では，Cre 5.98 mg/dl，eGFR 7と腎機能の低下をみとめる以外に，血算や肝機能，電解質

*Corresponding author: 京都第一赤十字病院脳神経・脳卒中科〔〒605-0981　京都市東山区本町15-749〕
[1)] 京都第一赤十字病院脳神経・脳卒中科
[2)] 京都府立医科大学脳神経内科
[3)] 横浜新都市脳神経外科病院脳神経内科・脳血管内科
[4)] 京都第一赤十字病院腎臓内科・腎不全科
[5)] 京都第一赤十字病院循環器内科
（Received March 14, 2020; Accepted April 21, 2020; Published online in J-STAGE on August 8, 2020）
doi: 10.5692/clinicalneurol.cn-001450

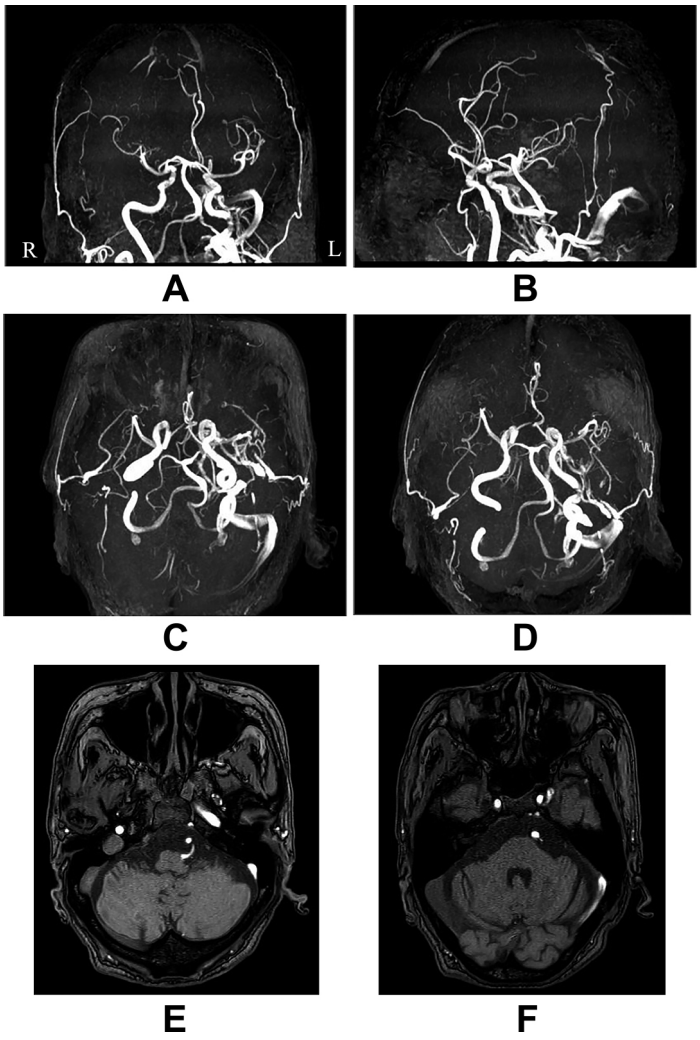

Fig. 1　Coronal (A, B) and axial (C, D) view of brain MR angiograms (TE 28 msec, TR 75 msec, TH 0.6 mm) and original images of time-of-flight MRA (E, F).
MRA images on day 1 of his headache show abnormal signals in the left transverse to sigmoid sinus (T-S) suggesting a left dural T-S arteriovenous fistula without drainage to the ipsilateral cavernous sinus and superior ophthalmic vein. Original images of time of flight angiography (TOF) demonstrate no apparent accumulation of branches of the left external carotid artery which indicates intradural fistulas.

に異常はなかった．頭部 CT で頭蓋内出血はなく，頭部 MRI では左被殻と左前頭葉，右頭頂葉の陳旧性脳梗塞巣のみ確認され，拡散強調画像での高信号域や ADC マップでの低信号域はなく，脳静脈血栓症は否定的であった．頭部 MRA では左側の横静脈洞から S 状静脈洞（transvers-sigmoid sinus：T-S 静脈洞）の異常信号がみられた（Fig. 1）．左上眼静脈の描出はなかった．急性発症の頭痛と左後頸部血管雑音，頭部 MRA での異常信号の存在から，左 T-S 静脈洞の硬膜動静脈瘻による頭蓋内圧亢進に伴う頭痛が第一に疑われたため，同日に当科入院となった．

入院後経過：入院後，頭痛は若干軽減するも残存し，入院 2 日目から左眼周囲の異常感覚も自覚し始めた．診察上，視野や眼球運動に問題はなく，眼底を含めた眼科的精査でも異常はみられなかった．入院 5 日目に血管造影検査を実施した．大動脈造影で左上肢シャント経由の早期静脈還流とともに，左鎖骨下静脈周囲の静脈の異常な発達がみられ，左内頸静脈（internal jugular vein; IJV）遠位部への逆流が確認された（Fig. 2A）．左頸動脈造影の動脈相早期で左 T-S 静脈洞の動静脈瘻を示唆するシャントはなく（Fig. 2B），静脈相後期では左横静脈洞と S 状静脈洞の結合部から左 IJV にかけての閉塞（Fig. 2C）が示唆された．右頸動脈や両椎骨動脈の造影にて異常はなかった．循環器内科および腎臓内科とともに検討した上で，左上肢シャント部静脈側の穿刺による左上肢の静脈造影を追加した．その結果，左橈側皮静脈と左腋窩静脈から左鎖骨下静脈にかけての還流がみられた．しかし，左 BCV と左 IJV 起始部が閉塞していたため，シャント血流は左外頸

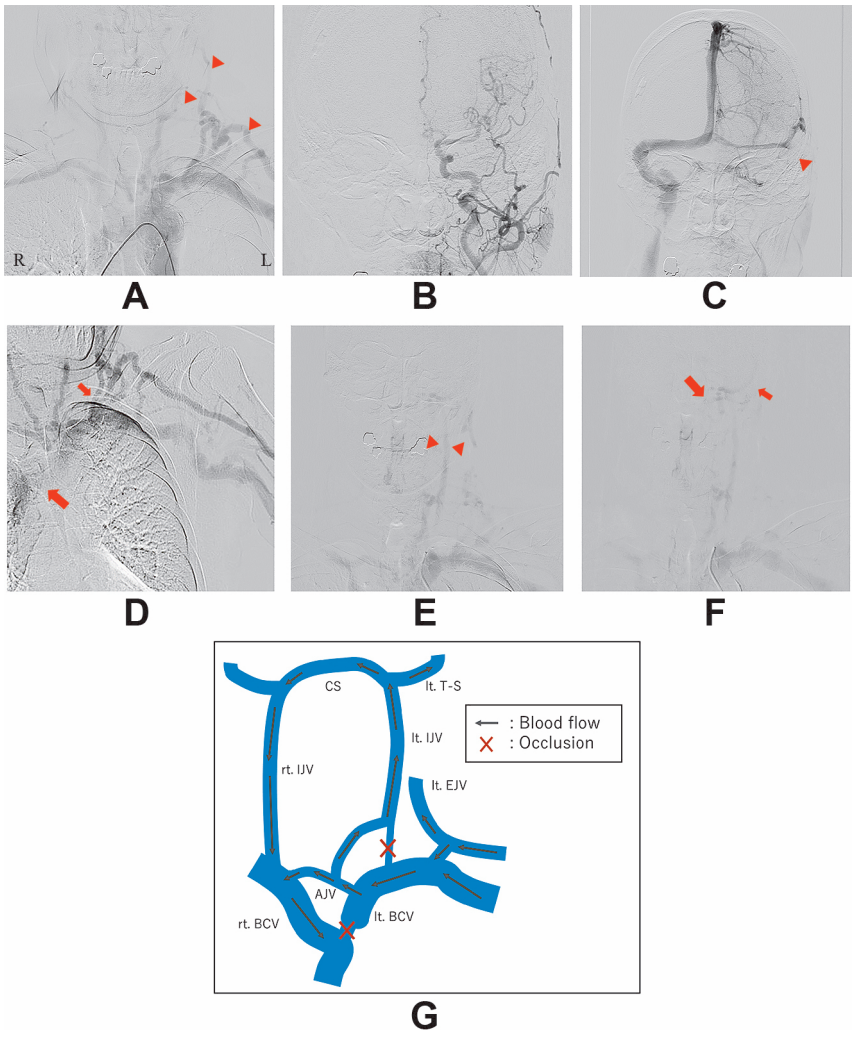

Fig. 2　Anterior-posterior images of digital subtraction angiograms of the aorta (A), left carotid artery (B and C), and venography via left brachial dialysis shunt (D–F) on the 5th day of his headache.
Aortogram (A) shows reflux of venous return from the left brachial dialysis shunt to the various veins (arrowheads) surrounding the let subclavian vein. Arterial (B) and venous (C) phase of angiograms of the left carotid artery reveal no arteriovenous fistula of the left transverse to sigmoid sinus (T-S) and cavernous sinus (CS), and no visualization of the junction of the left transverse and sigmoid sinus (c, arrowhead) to internal jugular vein (IJV). Venograms from the left brachial dialysis shunt (D–F) show occlusion of the left brachiocephalic vein (D, large arrow) and the ipsilateral origin of the IJV (D, small arrow). Venograms also demonstrate reflux to the distal portion of the left IJV (E, arrowheads) via the various veins which drains to the left T-S (F, small arrow) and the left CS (F, large arrow). A schema of the veins of the head and neck is shown (G). EJV: external jugular vein, AJV: anterior jugular vein, BCV: brachiocephalic vein.

静脈および左鎖骨下静脈から左前頸静脈に逆行しており，後者は対側に向かうとともに，同側を上行し（Fig. 2D），左 IJV 遠位部に逆流していた（Fig. 2E）．さらに同造影の後期相では左 IJV の造影剤が左 T-S 静脈洞や左海綿静脈洞（cavernous sinus：CV 静脈洞）にも流入し（Fig. 2F），後者は海綿間静脈洞を経由し，右 CV 静脈洞から右 IJV に還流していた．左右の前頸静脈の吻合を経由し，右 IJV にも僅かに流入していた（Fig. 2G）．これら血管造影所見から，頭痛の原因として，シャント肢高血圧による頭蓋内静脈逆流に起因する頭蓋内圧亢進症の関与が疑われた．ここで左上肢の触診・視診を再度おこなったところ，左上腕シャント部の軽度緊満感はあるものの，左手指のチアノーゼや冷感はなかった．入院 9 日目，循環器内科にて左 BCV 閉塞（Fig. 3A，ワイヤーの通過にて部分再開通している）に対する経皮的血管拡張術が行われた．左上腕シャント部に留置したシース経由で，閉塞部に対してガイドワイヤーを通過し，バルーンカテーテルで拡張した（Fig. 3B）．拡張直後の造影では，狭窄病変は狭窄率 30％以下に軽減し，上行性の静脈逆流も低減した（Fig. 3C）．手術日の夕方より頭痛と左眼周囲の違和感は速やかに消退したが，左後頸部の血管雑音に変化はなかった．術翌日に再検した頭部 MRA にて左 T-S 静脈洞の異常信号はほぼ消失していたため（Fig. 3D），自宅退院した．

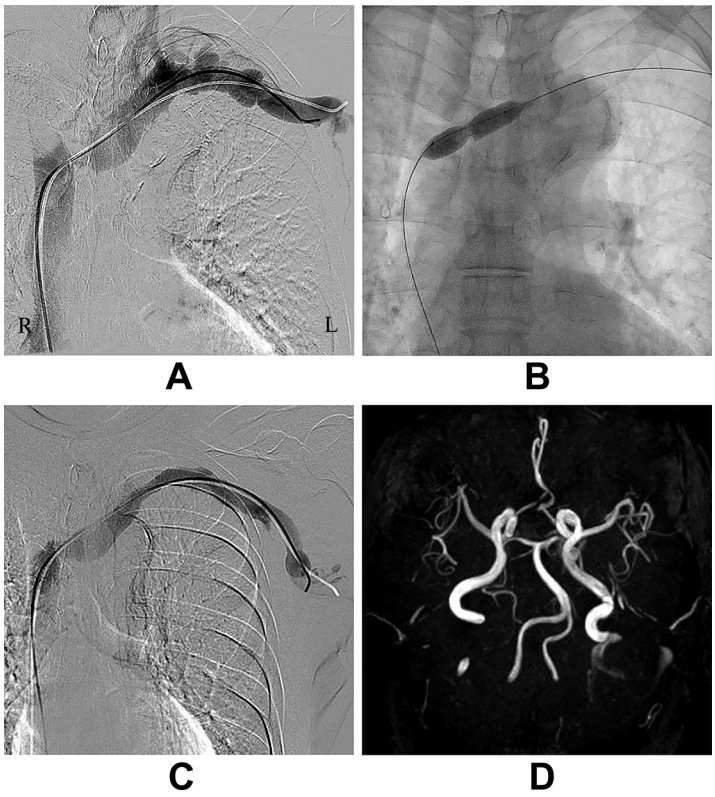

Fig. 3　Digital subtraction venograms (A and C) and a fluoroscopic image (B) during the percutaneous angioplasty, and MR angiogram (TE 6.9 msec, TR 23 msec, TH 0.6 mm) 3 days after the procedure.
Anterior-posterior images of venography via the left brachial shunt show an occlusive lesion of the left brachiocephalic vein (BCV), which is partial recanalization after lesion cross with guiding wire (A). Angioplasty with a balloon catheter for the lesion is performed (B), and successful dilation of the lesion with a residual stenotic ratio less than 30 percent is obtained and venous reflux toward the left internal jugular vein is markedly reduced (C). MR angiogram demonstrates disappearance of the abnormal signals of the left transverse to sigmoid sinus (D).

退院後，頭痛の再発はなかったが，12 カ月目に左上肢腫脹と左顔面の違和感が出現したため，当院に再入院となった．頭部から胸部までの MRA にて左 IJV から左 T-S 静脈洞につながる異常信号がみとめられ（Fig. 4），左 BCV の再閉塞と左シャント肢高血圧，頭蓋内静脈逆流の再発と診断した．循環器内科にて経皮的血管拡張術が再度施行された．術翌日より左顔面の違和感は消失し，後遺症なく自宅に退院した．

考　察

本例は内シャント肢側 BCV 閉塞による頭蓋内静脈逆流，頭蓋内圧亢進に関連し急性発症した頭痛例と考えた．血液透析例に生じる頭痛として，国際頭痛分類第 3 版での二次性頭痛の「10．ホメオスターシス障害による頭痛」における「10.2 透析頭痛」が一般的である[1]．本頭痛は「透析中に起こり，なおかつ透析終了後 72 時間以内に自然消失するもの」と定義され，発症機序については透析中の低血圧や透析性平衡異常症候群が考慮されている．しかし本例は透析中に生じたのではなく，なおかつ終了後 72 時間以降も持続しており，上記の「透析頭痛」とは異なるものと考えた．一方，上記分類における二次性頭痛の「6．頭頸部血管障害による頭痛」のなかには，「6.3.3 硬膜動静脈瘻（DAVF）による頭痛」があり[3]，脳静脈血栓症による頭蓋内圧亢進の特徴を伴った頭痛と説明されている．本例のシャント部位は，頭蓋内の硬膜ではなく，頭蓋外の左上肢であったが，病態としては DAVF に近いものと考えた．また，同分類における二次性頭痛の「7．非血管性頭蓋内疾患による頭痛」のなかに「7.1 頭蓋内圧亢進性頭痛」がある[4]．同頭痛は代謝・中毒・内分泌に起因するものや，水頭症に起因するものと定義されており，本例の頭痛には該当しないと考えた．

透析患者のシャント肢側の BCV の閉塞については，持続的な高圧乱流によって，血管内皮が過形成することで生じるとの仮説がある[5]．実際，シャント肢の静脈圧上昇症候（左上肢腫脹や左手指のチアノーゼなど）を呈した血液透析例では，その約 30％で中心静脈（上大静脈・腕頭静脈）の狭窄をみとめたとする報告がある[2]．しかし，同狭窄に起因する頭蓋内静脈逆流は，頸静脈弁の逆流防止機能および，IJV 逆流時の頭蓋内に入る前での左右甲状腺静脈の吻合や前頸静脈の頸静脈弓を経由した対側の頸静脈から BCV への還流により，神経症候を呈する頭蓋内圧亢進を生じることは稀である．

Fig. 4　Coronal view of neck MR angiogram (TE 28 msec, TR 75 msec, TH 0.6 or 0.7 mm) using MobiView application (Philips).
MR angiography performed on the recurrence of headache (12 months after angioplasty) shows recurrence of abnormal signals of not only transverse sinus and sigmoid sinus but also internal jugular vein on the left side ipsilateral to the brachial dialysis shunt, suggesting an intracranial venous reflux from the brachial dialysis shunt.

我々が渉猟しえた限りで過去の報告例は 3 例のみであった（Table 1）[6)7)]．本例では，左 BCV と左 IJV 起始部の閉塞があるものの，上述のような前頸部を中心とした頭蓋外での対側の右 IJV への静脈還流はめだたず，頭蓋内静脈洞への逆流量が多く，頭蓋内圧亢進をきたしたと推察された．一方，本例で左 BCV が再閉塞した際には頭痛発作はなく，左上肢腫脹や左手指のチアノーゼなどのシャント肢の静脈圧上昇症候をみとめた原因については，左上肢シャント血流の頭蓋内静脈逆流以外の還流経路が発達したことが一因と考えられた．ただし再発時の左顔面違和感については，経皮的血管拡張後に速やかに消退しており，頭蓋内静脈逆流に関連する症状であった可能性が高い．なお，左後頸部の血管雑音については，2 回の治療前後とも聴診上変化がみられておらず，静脈逆流とは無関係であったと考えられた．

本例でみられた頭部 MRA 上の左 T-S 静脈洞の異常信号については，入院当初は硬膜動静脈瘻が第一に疑われていた．Kim らは，T-S 静脈洞でなく CV 静脈洞ではあるが，頭部 MRA 上の異常信号を呈する頸静脈逆流と硬膜動静脈瘻の鑑別点として，前者では後者に比較し，頭部 MRA での異常信号が左側優位である頻度が高く，頭部 MRI での flow void や眼球突出，上眼静脈の拡張を伴う頻度が低いと報告している [8)]．本例での T-S 静脈洞の頭部 MRA 異常信号については，上述した Kim らの報告中の頸静脈逆流を示唆する所見に合致していた．また T-S 静脈洞の硬膜動静脈瘻の MRA-time of flight angiography（TOF）元画像では，左外頸動脈分枝の T-S 静脈洞周囲シャント部への血管集簇像を通常みとめるが，本例ではこれが欠如していた．後方視的にはこの所見も頸静脈逆流を強く示唆するものであった．一方，硬膜のシャントではなく，左上肢シャントから左鎖骨下静脈経由の左 IJV 内への逆流であれば，頸部の MRA にて左 IJV から同側 T-S 静脈洞につながる異常信号がみられるはずである．本例における再発時の頸部 MRA でも左 IJV 閉塞以遠から同側 T-S 静脈洞につながる異常信号が確認されており（Fig. 4），この所見も頸静脈逆流を示唆するものといえた．ただし頭痛が主訴である場合，頭部から頸部まで範囲を拡大した MRA を全例で撮像することは，撮像時間の延長や遠位部脳動脈瘤の検出率低下の問題から現実的ではなく，維持透析例でのかつ頭蓋内静脈逆

Table 1　Reports of patients on hemodialysis with neurological symptoms due to occlusive lesions of the brachiocephalic vein ipsilateral to the dialysis shunt. Previous cases of hemodialysis patients with neurological symptoms due to the ipsilateral BCV occlusion to fistula.

Case	Authors	Age	Neurological symptoms	Complications	BCV	Treatment	Postoperative course
1	Haruno N, et al (2011)	47	generalized seizures	none	occlusion	ligation of shunt	no symptom
2	Herzig DW, et al (2013)	73	headache, blurred vision	perimesencephalic subarachnoid hemorrhage	stenosis	ligation of shunt after failure of PTA	no symptom at 6-month follow-up
3	Herzig DW, et al (2013)	67	right arm weakness, myoclonic jerks	bilateral subcortical white matter edema	stenosis	PTA with stent placement	recurrence after 7 months and re-stenting. No symptom at 4-month follow-up
4	Present case	72	occipital headache	none	occlusion	PTA	recurrence after 12 months without headache and re-PTA

BCV: brachiocephalic vein, PTA: percutaneous transluminal angioplasty.

流が疑わしい例に限定して撮像すべきである．この撮像範囲拡大 MRA の適否については，上述した Kim らの鑑別点や TOF 元画像でのシャント部位への外頸動脈分枝の血管集簇の欠如などを参考にしながら，総合的に判断すべきである．

透析例における BCV 閉塞例の治療について，The National Kidney Foundation ガイドラインでは，本例と同様に経皮的血管形成術が第一選択とされており，外科的シャント結紮術および他部位でのシャント再建は第二選択となっている[9]．頸静脈逆流に伴い神経症候を呈した過去の報告例でも，本例と同様に，上記のいずれかの手術が実施されており，術後には神経症候の速やかな改善がみられていた（Table 1）．一方，本例では 12 ヶ月後にみられた左 BCV 再閉塞に対しても，ステント留置術でなく経皮的血管形成術を繰り返した．末梢シャント部位の血管形成術後の再狭窄に対して，3 ヶ月以内に 2 回以上の再狭窄を繰り返す例にはステントの使用や他部位でのシャント再建が提唱されているが[10]，本例のような BCV などシャント肢中心側における再狭窄に対しては，手技関連合併症の重篤度や，本邦での保険適応となるステントの欠如から，現時点では定まった治療指針はない．一方，抗血栓治療などの内科的治療に関しては，渉猟しえた限りで過去の報告はなかったが，BCV 閉塞の機序として血栓性のものよりも recoil など構造的なものが考慮される点から限定的な効果に留まるものと推察される．

シャント肢側の BCV 閉塞に起因する頭蓋内静脈逆流による頭痛は奏効する治療法があることから，血液透析例の頭痛の原因として念頭に置いておくべきである．

謝辞：本論文作成時に貴重がご助言をいただきました，京都山城総合医療センター放射線科副部長の伊藤誠明先生，当院の放射線診断科医長の一条祐輔先生，当院の耳鼻咽喉科副部長の為野仁輔先生に深謝する．

本論文の内容は，第 34 回日本脳神経血管内治療学会学術総会（2018 年 11 月 23 日，仙台市）にて発表した．

※著者全員に本論文に関連し，開示すべき COI 状態にある企業，組織，団体はいずれも有りません．

文　献

1）日本頭痛学会・国際頭痛分類委員会．10.2 透析頭痛．国際頭痛分類第 3 版．東京：医学書院；2018. p. 139-140.
2）Lumsden AB, MacDonald MJ, Isiklar H, et al. Central venous stenosis in the hemodialysis patient: incidence and efficacy of endovascular treatment. Cardiovasc Surg 1997;5:504-509.
3）日本頭痛学会・国際頭痛分類委員会．6.3.2 動静脈奇形（AVM）による頭痛および 6.3.3 硬膜動静脈瘻（DAVF）による頭痛．国際頭痛分類第 3 版．東京：医学書院；2018. p. 70-71.
4）日本頭痛学会・国際頭痛分類委員会．7.1 頭蓋内圧亢進性頭痛．国際頭痛分類第 3 版．東京：医学書院；2018. p. 93-96.
5）Herzig DW, Stemer AB, Bell RS, et al. Neurological sequelae from brachiocephalic vein stenosis. J Neurosurg 2013;118: 1058-1062.
6）Wu IH, Sheng WY, Hu HH, et al. Jugular venous reflux could influence cerebral blood flow: a transcranial doppler study. Acta Neurol Taiwan 2011;20:15-21.
7）Haruo N, Masahiko T, Rie H, et al. Venous cerebral infarction in a patient with peripheral hemodialysis shunt and occlusion of the left brachiocephalic vein. J Stroke Cerebrovasc Dis 2011;20: 381-383.
8）Kim E, Kim JH, Choi BS, et al. MRI and MR angiography findings to differentiate jugular venous reflux from cavernous dural arteriovenous fistula. AJR Am J Roentgenol 2014;202: 839-846.
9）Vascular Access Work Group. Clinical practice guidelines for vascular access. Am J Kidney Dis 2006;48 Suppl 1:S248-S273.
10）園田明永，金﨑周造，大田信一ら．1．内シャント（自己血管による動静脈瘻）のインターベンション治療．第 39 回日本 IVR 学会総会「技術教育セミナー」抄録集.

Abstract

Acute headache resulting from intracranial venous reflux due to occlusion of the brachiocephalic vein ipsilateral to a dialysis shunt

Yusuke Nishimura, M.D.[1)2)], Keisuke Imai, M.D.[1)], Masashi Hamanaka, M.D.[1)], Hidekazu Yamazaki, M.D.[1)3)], Tsuneyuki Nakanouchi, M.D., Ph.D.[4)] and Masayoshi Kimura, M.D.[5)]

[1)] Department of Neurology and Stroke Treatment, Kyoto First Red Cross Hospital
[2)] Department of Neurology, Kyoto Prefectural University of Medicine
[3)] Department of Neurology and Cerebrovascular Treatment, Yokohama Shintoshi Neurosurgical Hospital
[4)] Department of Nephrology and Blood Purification, Kyoto First Red Cross Hospital
[5)] Department of Cardiology, Kyoto First Red Cross Hospital

A 72-year-old man on hemodialysis for 7 years with end-stage renal disease was admitted to our institution due to an acute headache. Physical examination revealed normal signs except for noise on the back of his neck. His head CT and brain MRI showed no abnormal findings, while his MRA demonstrated abnormal signals in the left transverse to sigmoid sinus (T-S) suggesting a left dural arteriovenous fistula. After admission, his headache persisted and left orbital numbness also occurred. His digital subtraction angiography performed on the 5th day after admission showed no vascular malformation of either the T-S or cavernous sinus (CS). However, it showed occlusion of the left brachiocephalic vein (BCV) and the origin of the left internal jugular vein (IJV) resulting in intracranial venous reflux. These findings indicated the possibility that his acute headache was caused by intracranial venous reflux and increase of intracranial pressure resulting from the occlusion of the BCV ipsilateral to a dialysis shunt. Percutaneous transluminal angioplasty (PTA) for occlusion of the left BCV was performed on the 9th day and successful dilation of the lesion with a residual stenotic ratio less than 30 percent was obtained. After the angioplasty, venous reflux to the intracranial vein was markedly reduced and his headache and orbital numbness disappeared. One day after the procedure, MRA demonstrated the disappearance of the abnormal signals of the left T-S. Twelve months after discharge, he felt discomfort in the left of his face and the re-occlusion of the left VCV was demonstrated by angiography, therefore he received re-PTA. We recommend that physicians consider occlusion of the BCV ipsilateral to a dialysis shunt and intracranial venous reflux as a cause of acute headache in patients on hemodialysis.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2020;60:620-626)

Key words: acute onset headache, hemodialysis, occlusion of brachiocephalic vein, intracranial venous reflux, percutaneous transluminal angioplasty