

# Zespół Twiddlera: nowe oblicze starego powikłania

Twiddler's syndrome: a new face of the old problem

Anna Polewczyk<sup>1</sup>, Andrzej Kutarski<sup>2</sup>, Marianna Janion<sup>1, 3</sup>

<sup>1</sup>II Kliniczny Oddział Kardiologii, Wojewódzki Szpital Zespolony, Kielce

<sup>2</sup>Oddział Kardiologii, Uniwersytet Medyczny, Lublin

<sup>3</sup>Uniwersytet im. Jana Kochanowskiego, Wydział Nauk o Zdrowiu, Kielce

## Abstract

Twiddler's syndrome (TS) is the well known late electrotherapy complication. The typical TS develops as a result of the pulse generator rotation with retraction of the leads and consequent interruption of pacing. We reported 2 cases illustrating late TS without spontaneous old, ingrown lead extraction and very different leads damage.

**Key words:** Twiddler's syndrome, ingrown lead, transvenous lead extraction

Kardiol Pol 2013; 71, 11: 1174–1176

## WSTĘP

Zespół Twiddlera (TS) — zespół ruchomego stymulatora — jest najwcześniej rozpoznanym powikłaniem występującym u pacjentów po implantacji urządzeń stymulujących serce. Jako pierwszy TS opisał Bayliss w 1968 r. i od tego czasu ukazało się wiele publikacji omawiających przebieg tego powikłania. Typowa postać TS jest spowodowana przez rotację generatora wraz ze skręceniem, przemieszczeniem i często złamaniem elektrod [1]. Do rozwoju powikłania dochodzi najczęściej u pacjentów ze zbyt luźną kieszonką powstałą np. po wchłonięciu się krwiaka w łoży. Rotacja generatora może być wywołana poprzez manipulację pacjenta lub spontanicznie [2]. Obecnie obserwuje się nowe postaci tego dobrze znanego powikłania. W niniejszej pracy przedstawiono 2 przypadki chorych, u których do rozwoju TS doszło po wielu latach od implantacji układów stymulujących, a rozwój powikłania doprowadził do znacznego stopnia uszkodzenia elektrod mocno wrosniętych do wsierdzia.

## OPISY PRZYPADKÓW

**Przypadek 1.** Kobieta wieku 83 lat przyjęto do szpitala z powodu epizodów omdleń. Siedem lat wcześniej u chorej implantowano układ stymulujący typu AAI z powodu choroby węzła zatokowego. Podczas kontroli kardiostymulatora stwierdzono wzrost oporności na elektrodzie do 2000  $\Omega$ . Skopia RTG wykazała wielokrotne skręcenie elektrody w łoży stymulatora

spowodowane rotacją stymulatora z wytworzeniem dodatkowej pętli elektrody w żyłę głównej górnej (VCS) (ryc. 1A–C). W wenografii uwidoczono mnogie upośledzenia przepływu krwi żyłnej, największe w miejscu pętli elektrody w VCS (ryc. 1B). Ponadto odkryto, że możliwe było ręczne wykonanie pełnego obrotu stymulatora wzdłuż osi długiej poprzez przednią ścianę kieszonki (ryc. 1C, D). Pacjentkę zakwalifikowano do przezżylnego usunięcia układu stymulującego — uszkodzona elektroda została usunięta z zastosowaniem dwóch polipropylenowych dylatorów Byrda, wymieniono również generator. Po usunięciu elektrody uwidoczono podwójne przetarcie zewnętrznej osłonki silikonowej z jej perforacją (ryc. 1E, F).

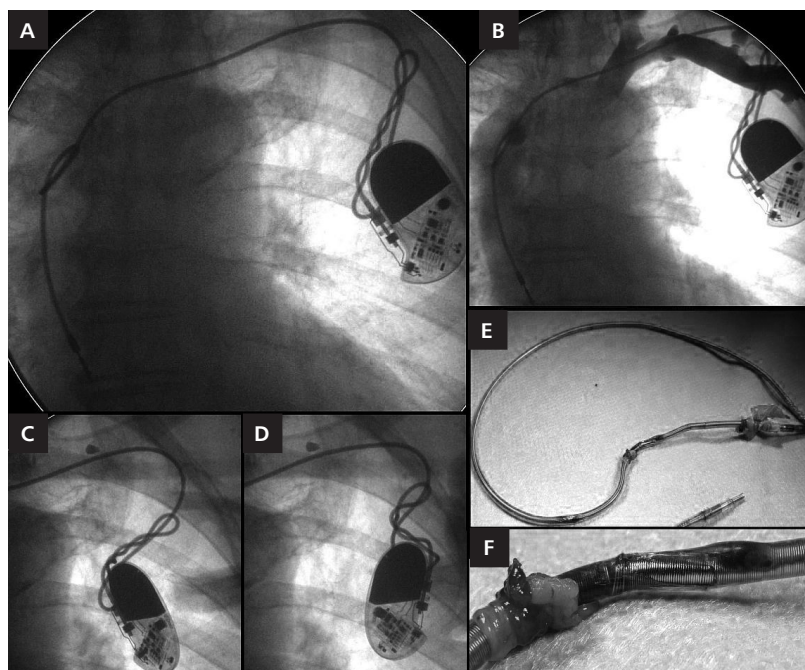
**Przypadek 2.** Kobieta w wieku 73 lat, po implantacji układu stymulującego serce typu DDD 17 lat wcześniej z powodu objawowego bloku przedsionkowo-komorowego II stopnia, po wymianie kardiostymulatora 2 lata wcześniej, została przyjęta do szpitala z powodu stymulacji mięśnia piersiowego i utraty skutecznej stymulacji. Skopia RTG ujawniła znacznego stopnia skręcenie elektrod w pobliżu generatora oraz elektrody komorowej w tej okolicy (ryc. 2A–C). Ponadto uwidoczono dodatkową pętlę elektrody w prawym przedsionku. Dopiero po otwarciu kieszonki stymulatora można było w pełni zobaczyć stopień pozwijania elektrod (ryc. 2B, C). Zabieg przezżylnego usunięcia elektrod był bardzo skomplikowany, wymagał jednoczesnego użycia dwóch polipropylenowych

## Adres do korespondencji:

dr n. med. Anna Polewczyk, II Kliniczny Oddział Kardiologii, Wojewódzki Szpital Zespolony, ul. Grunwaldzka 45, 25–736 Kielce, e-mail: annapolewczyk@wp.pl

Praca wpłynęła: 08.05.2012 r. Zaakceptowana do druku: 03.07.2012 r.

Copyright © Polskie Towarzystwo Kardiologiczne



**Rycina 1.** Przypadek 1. Przedoperacyjny RTG klatki piersiowej (A). Widoczne zwężenia żyły bezimiennej (B). Możliwa manualna rotacja stymulatora przez wiotką przednią ścianę kieszonki stymulatora (C, D). Usunięte elektrody na stole operacyjnym (E, F). Widoczne podwójne przetarcie zewnętrznej silikonowej osłonki elektrody w miejscu pętli w żyłę główną górną (E, F)

dylatorów Byrda w celu odseparowania silnie skręconych i zrosniętych elektrod (ryc. 2D). W efekcie obydwie elektrody usunięto w całości, bez powikłań. Pacjencie implantowano dwie nowe elektrody wraz z nowym stymulatorem (ryc. 2E) i wypisano do domu w stanie ogólnym dobrym.

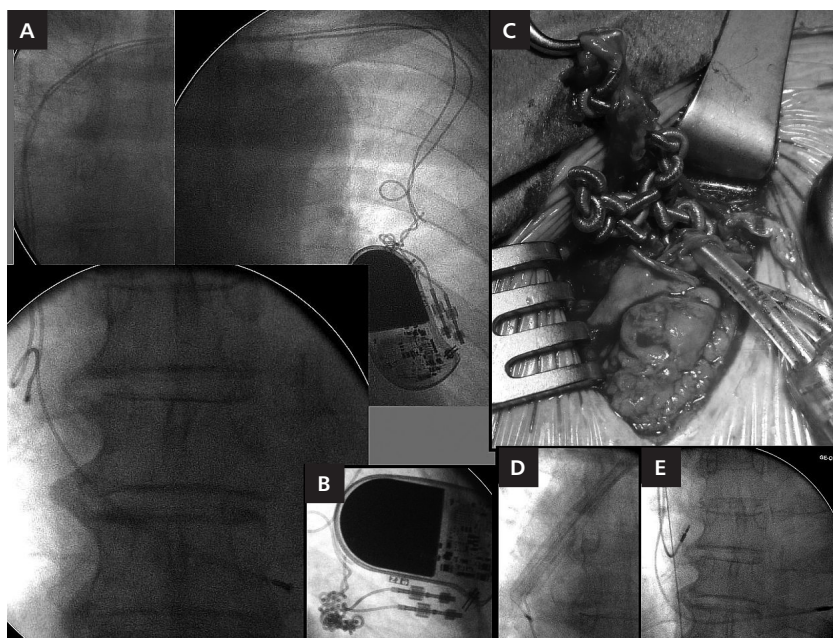
### OMÓWIENIE

Zespół Twiddlera jest rzadko występującym, lecz poważnym i łatwo diagnozowanym powikłaniem elektroterapii. Dotychczas brakuje precyzyjnych danych dotyczących częstości występowania TS; wg raportu z jednego ośrodka [3] występowanie tego powikłania zanotowano w 0,07% przypadków podczas 10-letniej obserwacji.

Typowy TS stwierdza się najczęściej po kilku miesiącach, rzadziej kilku latach od implantacji kardiostymulatora. Objawia się on nagłym brakiem stymulacji spowodowanym spontaniczną „ekstrakcją” elektrod. Często TS wiąże się z wystąpieniem krwiaka łoży jako wczesnego powikłania implantacji układu, a następnie z poszerzeniem kieszonki spowodowanym pozostaniem przestrzeni po wchłonięciu krwiaka. Niejednokrotnie pacjenci masując okolice łoży, prowokują rotację generatora. Wielokrotne obroty generatora skutkują skręceniem elektrod wraz z ich przemieszczeniem [4]. Często pierwotna przyczyna TS pozostaje niewyjaśniona. Do sugerowanych czynników predysponujących do rozwoju tego powikłania należą: otyłość, podeszły wiek, płeć żeńska, nadmierne ruchy kończyn górnych [1, 5–7]. Niezależnie od czynników inicjujących zdarzenie, autorzy niniejszej pracy

zauważyli rozwój nowych, ciężkich postaci TS. Pierwszy przypadek TS przedstawiony powyżej ilustruje bardzo poważne uszkodzenie elektrody spowodowane jej silnym skręceniem w VCS, bez przemieszczenia elektrody. Stara, mocno wrosnięta do wsierdzia elektroda nie mogła zostać wyrwana i ulec przemieszczeniu podczas rotacji generatora. „Nadmiar” elektrody związany z rotacją stymulatora doprowadził do powstania pętli w VCS. Po upływie czasu na skutek tarcia o siebie spętłonych fragmentów elektrody (pociąganej rytmicznie podczas pracy serca) doszło do abrazji silikonowej osłonki elektrody z jej perforacją. Autorzy obecnej pracy uważają, że przedstawiony tutaj progresywny mechanizm samouszkodzenia elektrody na skutek tarcia jej fragmentów o samą siebie jest unikatowy i dotychczas niespotykany w piśmiennictwie.

Drugi przypadek ilustruje jeszcze cięższą postać TS. Przede wszystkim należy zwrócić uwagę na fakt, że do rozwoju powikłania doszło po 17 latach od implantacji układu stymulującego. Prawdopodobnie rozwój TS został zainicjowany podczas wymiany kardiostymulatora poprzez przerwanie kieszonki lub nawet umieszczenie generatora poza kieszonką. W wyniku rotacji stymulatora wokół jego krótkiej osi bardzo mocno wrosnięte 17-letnie elektrody ulegały coraz silniejszemu skręceniu. Silna adhezja obu unipolarnych elektrod ze ścianą żyły na całym przebiegu uniemożliwiała przemieszczanie elektrod, doprowadzając w konsekwencji do złamania elektrody komorowej i uszkodzenia zewnętrznej osłonki elektrody przedsionkowej. Zabieg przeżyłnego usu-



**Rycina 2.** Przypadek 2. Przedoperacyjny RTG klatki piersiowej (A). Widoczne liczne spętlenia elektrody w obrębie kieszonki stymulatora (B, C). Bardzo trudne usuwanie obu elektrod z powodu ich wzajemnego połączenia w obrębie blizny łącznotkankowej — konieczność jednoczesnego odpreparowania ich za pomocą dwóch dylatorów Byrda (D). Uszkodzone elektrody zostały wymienione na dwie nowe: przedsionkową i komorową (E). Widoczny jeszcze przewodnik angiograficzny stanowił dodatkowe zabezpieczenie dostępu żyłnego

nięcia elektrod był w tym przypadku prawdziwym wyzwaniem dla operatora.

W obliczu pojawiania się coraz nowych, bardziej agresywnych postaci TS, bardzo ważną powinna być prewencja rozwoju takich komplikacji. Podczas implantacji układu stymulującego trzeba umieszczać generator między powięziami mięśnia piersiowego większego i mniejszego, z jego przyszyciem do powięzi, lecz nie należy przymocowywać stymulatora do tkanki podskórnej. Bardzo ważną metodą prewencji jest wytworzenie podczas zabiegu jak najmniejszej kieszonki [8, 9]. W celu prewencji rozwoju późnych postaci TS związanych z wymianą kardiostymulatora należy również zwracać szczególną uwagę na prawidłową lokalizację nowego generatora, wraz z unikaniem nadmiernego poszerzenia kieszonki [10–12].

### WNIOSKI

Mimo że TS jest rzadko spotykanym powikłaniem elektroterapii, może być przyczyną poważnych problemów klinicznych i zagrażających życiu komplikacji. Jak przedstawiono powyżej, szczególnie niebezpieczny przebieg charakteryzuje nowo wykryte formy TS — rozwijające się w późnym okresie po implantacji układów stymulujących. Obraz TS w takiej postaci bywa odmienny od opisywanego we wcześniejszym piśmiennictwie. Spontaniczna „ekstrakcja” bardzo dawno implantowanych, mocno wrośniętych elektrod staje się niemożliwa, w związku z tym proces postępującego coraz silniejszego skręcenia elektrod doprowadza do ich znacznego uszkodzenia.

Sposób postępowania przy tego typu powikłaniach wymaga bardzo skomplikowanej procedury przezżylnego usunięcia elektrod przez bardzo doświadczonego operatora.

**Konflikt interesów:** nie zgłoszono

### Piśmiennictwo

1. Bayliss CE, Beanlands DS, Baird RJ. The pacemaker-twiddler's syndrome: a new complication of implantable transvenous pacemakers. *Can Med Assoc J*, 1968; 99: 371–373.
2. Weiss D, Lorber A. Pacemaker Twiddler's syndrome. *Int J Cardiol*, 1987; 15: 357–360.
3. Gialafos J, Theophilis A, Siamas G. Spontaneous displacement of a pacemaker electrode and its subsequent successful reimplantation. *Br Heart J*, 1989; 62: 403–405.
4. Roberts JS, Wenger NK. Pacemaker Twiddler's syndrome. *Am J Cardiol*, 1989; 63: 1013–1016.
5. Lal RB, Avery RD. Aggressive pacemaker Twiddler's syndrome. Dislodgement of an active fixation ventricular pacing electrode. *Chest*, 1990; 97: 756–757.
6. Kutarski A, Dubejko J, Kudlicki J. The “mobile stimulator syndrome”: a rare complication of treatment using continuous electric stimulation. *Wiad Lek*, 1986; 39: 1431–1436.
7. Said SA, Van Driel BA, Onrust A. Pacemaker twiddler's syndrome: delayed transection of permanent ventricular lead. *Eur Heart J*, 1996; 17: 1914–1915.
8. Ruder MA, Mead RH, Smith NA, Winkle RA. Defibrillator “twiddler's” syndrome. *Pacing Clin Electrophysiol*, 1990; 13: 1073–1074.
9. Fahraeus T, Hoijer CJ. Early pacemaker Twiddler syndrome. *Europace*, 2003; 5: 279–281.
10. Vural A, Agacdiken A, Ural D et al. Reel syndrome and pulsatile liver in a patient with a two-chamber pacemaker. *Jpn Heart J*, 2004; 45: 1037–1042.
11. Klotz S, Wollmann C, Asfour B et al. Twiddler's syndrome: not a disease of the old patient. A case report. *Herzschr Electrophys*, 2003; 14: 94–97.
12. Femenia F, Eng CF, Tec MA. Iatrogenic Twiddler's syndrome: case report and proposed experimental model. *Indian Pacing Electrophysiol J*, 2010; 10: 517–521.