

## Síndrome de *Reel* en un paciente portador de un cardiodesfibrilador automático implantable

Dra. Marleny Cruz Cardentey<sup>1</sup>✉, Dr. C. Jesús A. Castro Hevia<sup>2</sup>, Dr. Osmín Castañeda Chirino<sup>2</sup>, Dr. Roylán Falcón Rodríguez<sup>2</sup> y Dr. Frank López Martínez<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Departamento de Arritmia y Marcapasos, Hospital Clínico Quirúrgico Hermanos Ameijeiras. La Habana, Cuba.

<sup>2</sup>Servicio de Electrofisiología, Arritmia y Marcapasos. Instituto de Cardiología y Cirugía Cardiovascular. La Habana, Cuba.

*Full English text of this article is also available*

### INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Recibido: 20 de abril de 2018  
Aceptado: 7 de junio de 2018

### Conflictos de intereses

Los autores declaran que no existen conflictos de intereses

### Abreviaturas

CDAI: cardiodesfibrilador automático implantable

### RESUMEN

El síndrome *Twiddler* y su variante el síndrome de *Reel*, son complicaciones poco frecuentes en los pacientes portadores de un cardiodesfibrilador automático implantable; pero pueden provocar disfunción severa del dispositivo. La identificación de los factores predisponentes y la intervención sobre ellos, así como el seguimiento periódico del funcionamiento mediante telemetría y radiografía de tórax, son útiles en la prevención de estos síndromes. Se describe el caso de un paciente con síndrome de *Reel* al tercer mes del implante de un cardiodesfibrilador, como consecuencia de una sepsis del bolsillo del generador.

**Palabras clave:** Síndrome de Reel, Desfibrilador automático implantable, Electrodo, Complicaciones

### *Reel syndrome in a patient with an implantable cardioverter-defibrillator*

### ABSTRACT

*The Twiddler syndrome and its variant, the Reel syndrome, are uncommon complications in patients with an implantable cardioverter-defibrillator, but they can cause severe device dysfunction. The identification of the predisposing factors and the intervention on them, as well as the periodic monitoring of the operation by means of telemetry and chest radiography, are useful in the prevention of these syndromes. Here is described the case of a patient with Reel syndrome at the third month after the implantation of a cardioverter-defibrillator, as a result of a sepsis in the generator pocket.*

**Key words:** Reel syndrome, Implantable cardioverter-defibrillator, Electrodes, Complications

✉ M Cruz Cardentey

Hospital Hermanos Ameijeiras. San Lázaro 701, e/ Belascoaín y Marqués González. Centro Habana 10300. La Habana, Cuba.

Correo electrónico:

marleny.cruz@infomed.sld.cu

### INTRODUCCIÓN

El síndrome de *Twiddler* fue descrito por primera vez en un paciente con marcapasos unicameral en 1968 por Bayliss *et al*<sup>1</sup>. Consiste en la rotación del generador en su eje axial con torsión de los electrodos, que puede llegar a su fractura o desplazamiento y, por consiguiente, provocar disfun-

ción del dispositivo. Veltri *et al*<sup>2</sup> informaron por primera vez la presencia de este síndrome en un paciente con cardiodesfibrilador automático implantable (CDAI) en el año 1984.

El síndrome de *Reel* es una variante del síndrome de *Twiddler*, en el cual la rotación del generador ocurre en su eje transversal, con enrollamiento (*reel*) de los electrodos alrededor del dispositivo. Carnero-Varo *et al*<sup>3</sup>, en el año 1999, realizaron la primera descripción en un paciente con marcapasos unicameral. A continuación, se describe el caso de un paciente con síndrome de *Reel* al tercer mes de la implantación de un CDAI.

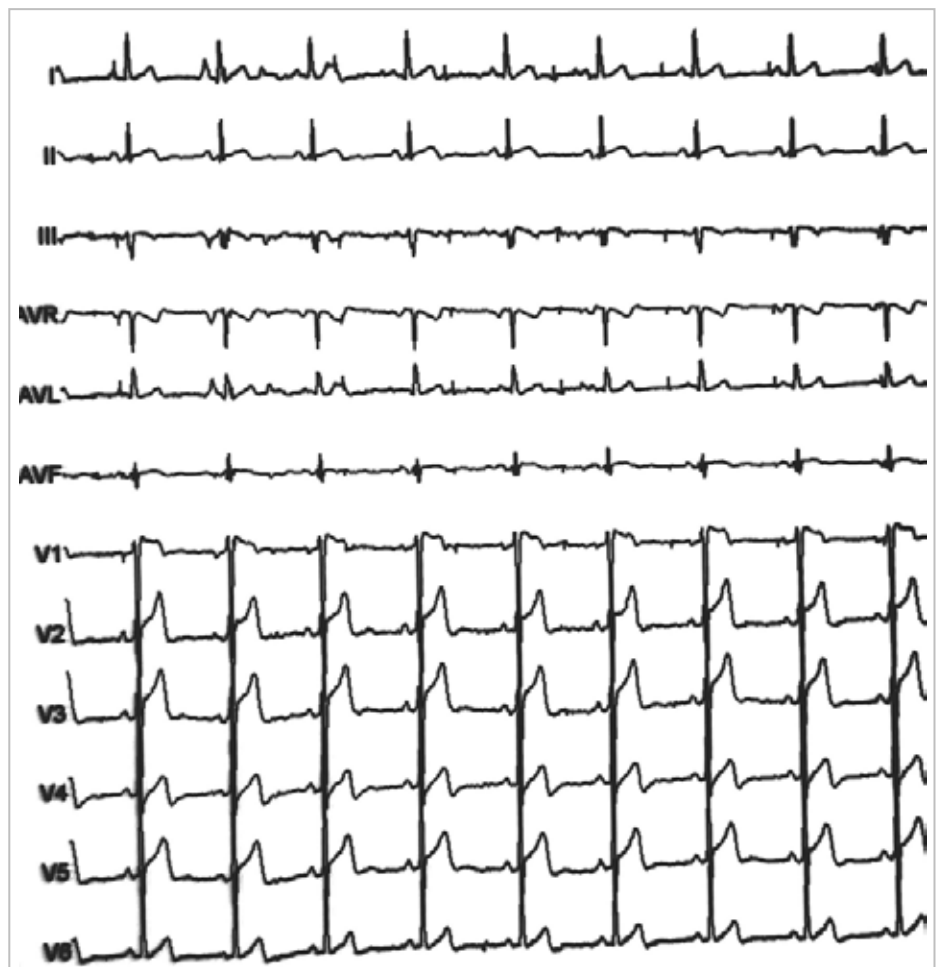
## CASO CLÍNICO

Paciente masculino, de 38 años de edad, normopeso, sin antecedentes patológicos personales de interés y con el diagnóstico de fibrilación ventricular primaria. Se le implantó un CDAI VDD (Iforia 5 VR-T-Dx) por vía de acceso cefálica izquierda. El electrodo de fijación activa (Protego DF-1-Pro MRI Dx 65/15) se ubicó en el ápex del ventrículo derecho y se fijó a la fascia muscular pectoral con los correspondientes anillos de fijación. Las medidas al implante fueron las siguientes: umbral 0,7 V; amplitud de la onda R 6,7 mV; amplitud de la onda P 2,2 mV; e impedancia 552  $\Omega$ . El generador se ubicó en un bolsillo subcutáneo y no se fijó a la fascia muscular. Se programó una frecuencia básica de estimulación de 40 latidos por minutos (lpm) y una ventana de fibrilación ventricular de 200 lpm.

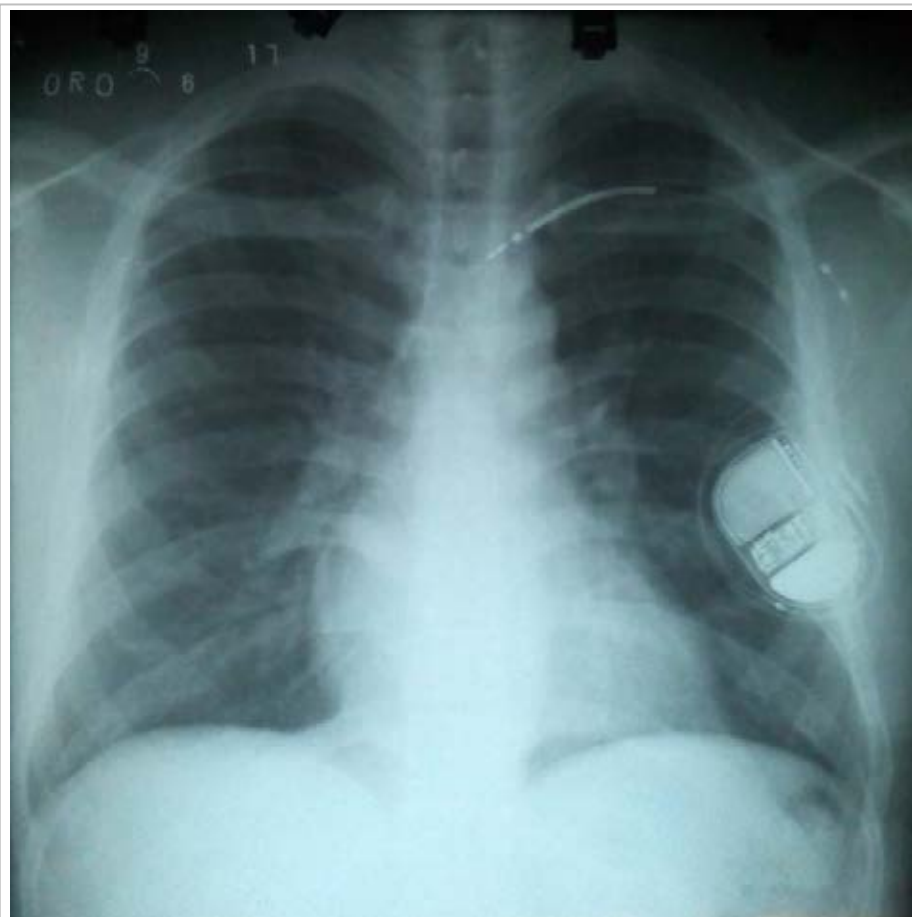
Al tercer mes del implante el paciente acudió a la primera consulta de seguimiento y refirió molestias ligeras en la zona del bolsillo, pero sin signos de inflama-

ción aguda. El electrocardiograma (**Figura 1**) mostró ritmo sinusal con una frecuencia cardíaca de 80 lpm, fallo de captura del canal ventricular y de detección de ambos canales. Se realizó telemetría del dispositivo, la cual demostró una impedancia del electrodo ventricular de 560  $\Omega$  y del electrodo de desfibrilación de 54  $\Omega$ , ausencia de detección de las ondas R y P, y fallo de captura ventricular. La radiografía de tórax anteroposterior (**Figura 2**) mostró una retracción del electrodo, con ubicación del extremo distal a nivel de la vena innominada, enrollado alrededor del generador, compatible con un síndrome de *Reel*. No se recogió en el paciente el antecedente de una manipulación excesiva del generador, ni de la realización de vicios posturales repetitivos.

Al realizar la intervención quirúrgica para reco-



**Figura 1.** Electrocardiograma de 12 derivaciones. Ritmo sinusal, frecuencia cardíaca de 80 latidos por minuto. Fallo de captura del canal ventricular y de detección de ambos canales.



**Figura 2.** Radiografía de tórax anteroposterior que muestra retracción del electrodo, con ubicación de su extremo distal a nivel de la vena innominada, enrollado alrededor del generador del CDAI.

ras de los cables<sup>4</sup>. En este paciente se observó un desplazamiento del electrodo hasta la vena innominada, con enrollamiento alrededor del generador, pero sin fractura. Los valores normales de las impedancias de estimulación y de desfibrilación demostraron la integridad de la sonda.

Las formas de presentación de estos síndromes son variables y su prevalencia es de aproximadamente 0,07%<sup>5</sup>. El desplazamiento o fractura de los electrodos puede producir fallo de detección, aumento de la impedancia o del umbral de estimulación, con fallo de captura y estimulación frénica, braquial o pectoral. En los portadores de CDAI se pueden presentar fallos en la detección por defecto o exceso, así como aumento del umbral de desfibrilación con ineffectividad de la terapia<sup>6,7</sup>. El fallo de detección y de captura tuvo un curso asintomático en este paciente no dependiente de la estimulación de marcapasos. Tampoco se registraron

disfunciones de la terapia del CDAI.

locar el electrodo se observó una sepsis del bolsillo con dehiscencia de los puntos de fijación del electrodo. Se extrajo totalmente el sistema infectado y no se constató fractura del electrodo. El paciente se negó al reimplante de un nuevo sistema del lado contralateral, por lo que se inició tratamiento con sulfato de quinidina 200 mg cada 8 horas.

## COMENTARIO

Los síndromes de *Twiddler* y *Reel* son poco frecuentes en los pacientes portadores de sistemas de estimulación cardíaca. Se producen por mecanismos diferentes, pero en común son causas de disfunción de los dispositivos. En la mayoría de los informes de síndrome de *Reel* los electrodos están desplazados, pero sin daños, a diferencia del síndrome de *Twiddler*, donde el mecanismo de rotación produce fractu-

En algunos casos se ha podido demostrar una manipulación excesiva voluntaria o involuntaria del generador por parte del paciente, pero en la inmensa mayoría se desconoce la causa. Se han descrito factores predisponentes para el desarrollo de estos síndromes, como: el sexo femenino, la edad avanzada, la obesidad, las enfermedades neuro-psiquiátricas, los vicios posturales repetitivos, los bolsillos subcutáneos muy amplios, el peso y tamaño del generador, la ubicación abdominal y el recambio del dispositivo por otro de menor tamaño<sup>9,10</sup>.

Se proponen algunas medidas en el momento del implante para prevenir estos síndromes, tales como:

fijar a la fascia muscular el generador y los electrodos con sus correspondientes anillos de fijación, ubicar el generador subpectoral, emplear una bolsa de dacrón y limitar el tamaño del bolsillo, aunque esta última medida puede favorecer la necrosis aséptica.

La infección en el primoimplante del CDAI es infrecuente y oscila entre 0,4-5,0%, según las distintas series<sup>11</sup>. Consideramos que la pérdida de los puntos de fijación del electrodo a consecuencia de la sepsis, fue el factor predisponente para el desarrollo del síndrome de *Reel* en este caso<sup>9,12</sup>.

La identificación temprana de los pacientes con factores predisponentes y el seguimiento periódico del funcionamiento y la ubicación de los electrodos, mediante telemetría y radiografía de tórax, garantizan un diagnóstico precoz de estos síndromes y se evitan complicaciones mayores por disfunción de los dispositivos.

## BIBLIOGRAFÍA

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(8):371-3.
2. Veltri EP, Mower MM, Reid PR. Twiddler's syndrome: A new twist. *Pacing Clin Electrophysiol.* 1984;7(6 Pt 1):1004-9.
3. Carnero-Varo A, Pérez-Paredes M, Ruiz-Ros JA, Giménez-Cervantes D, Martínez-Corbalán FR, Cubero-López T, et al. "Reel syndrome": A new form of Twiddler's syndrome? *Circulation.* 1999;100(8):e45-6.
4. Munawar M, Munawar DL, Basalamah F, Pambudi J. Reel syndrome: A variant form of Twiddler's syndrome. *J Arrhythmia.* 2011;27(4):338-42.
5. Konishi H, Tokano T, Nakazato Y, Komatsu S, Suwa S, Komatsu K, et al. Twiddler's syndrome detected by patient's complaint of implantable cardioverter-defibrillator rotation in the subcutaneous pocket. *J Arrhythm.* 2012;28(4):239-41.
6. Patel MB, Pandya K, Shah AJ, Lojewski E, Castellani MD, Thakur R. Reel syndrome – not a twiddler variant. *J Interv Card Electrophysiol.* 2008;23(3):243-6.
7. Chemello D, Subramanian A, Cameron D. Twiddler syndrome with 180° rotation of an implantable cardioverter defibrillator generator resulting in malfunction of one of the shocking coils. *Europace.* 2009;11(10):1259.
8. Ramírez P, Barrero R, González R, Frangini P, Vergara I. Síndrome de Twiddler: una causa infrecuente de disfunción de marcapaso definitivo. *Rev Med Chile.* 2011;139(7):917-9.
9. Larrouse E, Rodríguez E, Moya A, Rodríguez O, Soler Soler J. Síndrome de Twiddler en un paciente portador de desfibrilador automático implantable: ¿una complicación evitable? *Rev Esp Cardiol.* 2001;54(12):1456-8.
10. Ejima K, Shoda M, Manaka T, Hagiwara N. Reel syndrome. *J Cardiovasc Electrophysiol.* 2009;20(7):822.
11. van Rees JB, de Bie MK, Thijssen J, Borleffs CJ, Schalij MJ, van Erven L. Implantation-related complications of implantable cardioverter-defibrillators and cardiac resynchronization therapy devices: a systematic review of randomized clinical trials. *J Am Coll Cardiol.* 2011;58(10):995-1000.
12. Echeverri D, Barón AM, García JC, Ramírez JD. Síndrome de reel: una variante del síndrome de Twiddler. *Rev Colomb Cardiol.* 2015;22(3):153-5.

## Reel syndrome in a patient with an implantable cardioverter-defibrillator

Marleny Cruz Cardentey<sup>1</sup>✉, MD; Jesús A. Castro Hevia<sup>2</sup>, PhD; Osmín Castañeda Chirino<sup>2</sup>, MD; Roylán Falcón Rodríguez<sup>2</sup>, MD; and Frank López Martínez<sup>2</sup>, MD

<sup>1</sup> Department of Arrhythmia and Cardiac Pacing, Hospital Clínico Quirúrgico Hermanos Ameijeiras. Havana, Cuba.

<sup>2</sup> Department of Electrophysiology, Arrhythmia and Cardiac Pacing, Instituto de Cardiología y Cirugía Cardiovascular. Havana, Cuba.

*Este artículo también está disponible en español*

### ARTICLE INFORMATION

Received: April 20, 2018

Accepted: June 7, 2018

### Competing interests

The authors declare no competing interests

### Acronyms

ICD: implantable cardioverter-defibrillator

### ABSTRACT

The Twiddler syndrome and its variant, the Reel syndrome, are uncommon complications in patients with an implantable cardioverter-defibrillator, but they can cause severe device dysfunction. The identification of the predisposing factors and the intervention on them, as well as the periodic monitoring of the operation by means of telemetry and chest radiography, are useful in the prevention of these syndromes. Here is described the case of a patient with Reel syndrome at the third month after the implantation of a cardioverter-defibrillator, as a result of a sepsis in the generator pocket.

**Key words:** Reel syndrome, Implantable cardioverter-defibrillator, Electrodes, Complications

### *Síndrome de Reel en un paciente portador de un cardiodesfibrilador automático implantable*

### RESUMEN

*El síndrome Twiddler y su variante el síndrome de Reel, son complicaciones poco frecuentes en los pacientes portadores de un cardiodesfibrilador automático implantable; pero pueden provocar disfunción severa del dispositivo. La identificación de los factores predisponentes y la intervención sobre ellos, así como el seguimiento periódico del funcionamiento mediante telemetría y radiografía de tórax, son útiles en la prevención de estos síndromes. Se describe el caso de un paciente con síndrome de Reel al tercer mes del implante de un cardiodesfibrilador, como consecuencia de una sepsis del bolsillo del generador.*

**Palabras clave:** Síndrome de Reel, Desfibrilador automático implantable, Electrodes, Complicaciones

✉ M Cruz Cardentey

Hospital Hermanos Ameijeiras. San Lázaro 701, e/ Belascoáin y Marqués González. Centro Habana 10300.

La Habana, Cuba.

E-mail address:

marleny.cruz@infomed.sld.cu

### INTRODUCTION

The Twiddler syndrome was described for the first time in a patient with a single-chamber pacemaker in 1968, by Bayliss *et al*<sup>1</sup>. It consists in the rota-

tion of the generator on its axial axis with torsion of the electrodes, which can reach its fracture or displacement and, therefore, to cause the device's dysfunction. Veltri *et al.*<sup>2</sup> reported for the first time the presence of this syndrome in a patient with an implantable cardioverter-defibrillator (ICD) in 1984.

The Reel syndrome is a variant of the Twiddler syndrome, in which the generator's rotation occurs in its transversal axis, with reel of the electrodes around the device. Carnero-Varo *et al.*<sup>3</sup> made the first description in a patient with a single-chamber pacemaker, in 1999. Next, we describe the case of a patient with Reel syndrome in the third month of an ICD implantation.

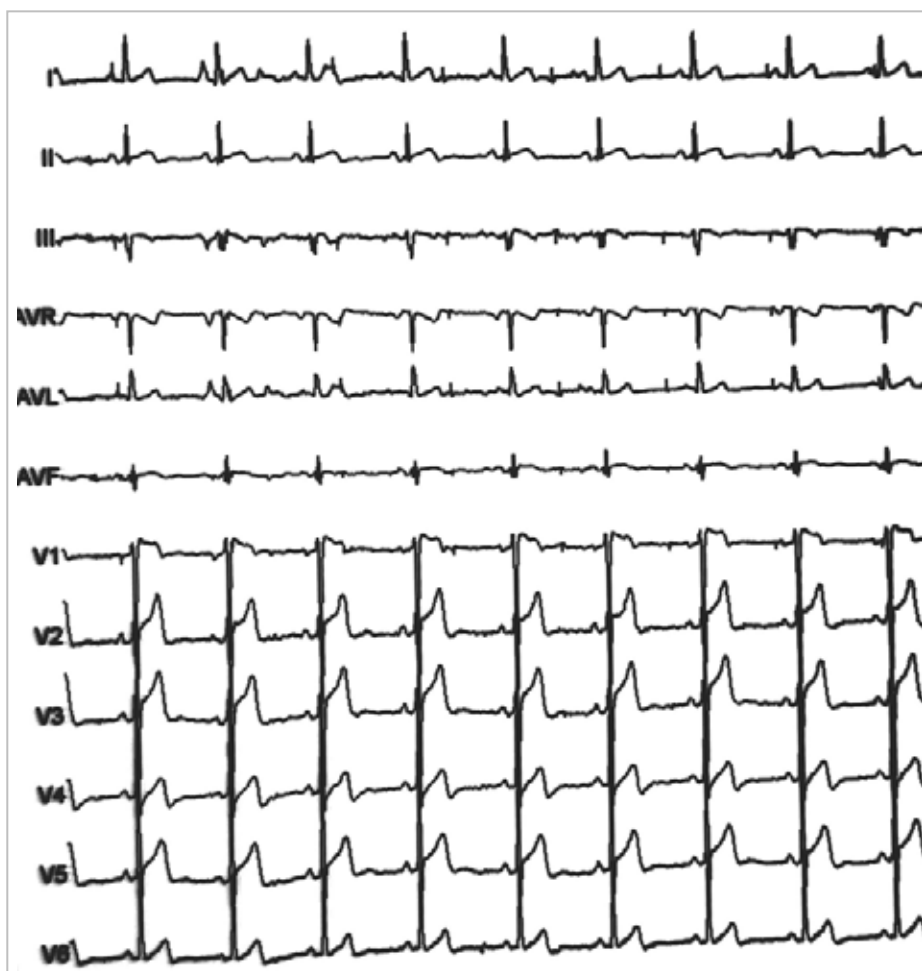
## CASE REPORT

A 38-year-age male patient, normal weight, without personal pathological history of interest, and with the diagnosis of primary ventricular fibrillation. An ICD VDD (Iforia 5 VR-T-Dx) was implanted via left cephalic access. The active fixation electrode (Protego DF-1-Pro MRI Dx 65/15) was located at the apex of the right ventricular and fixed to the pectoralis muscle fascia with the corresponding fixing rings. The measurements for the implant were the following: threshold 0.7 V; amplitude of the R wave 6.7 mV; amplitude of the P wave 2.2 mV; and impedance 552  $\Omega$ . The generator was located in a subcutaneous pocket and no attention was paid to the muscle fascia. A basic pacing rate of 40 beats per minute (bpm) and a window of ventricular atrial fibrillation of 200 bpm were programmed.

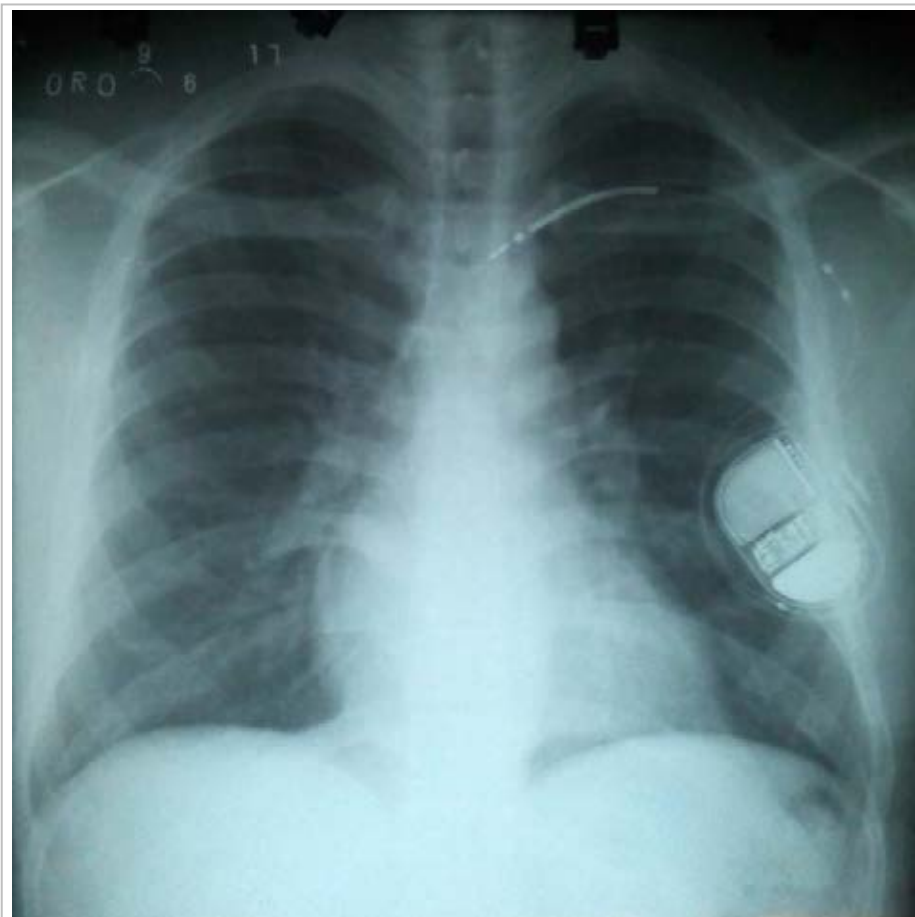
At the third month of the implant, the patient came to the first follow-up and referred slight discomfort in the pocket, but without signs

of acute inflammation. The electrocardiogram (**Figure 1**) showed sinus rhythm with a heart rate of 80 bpm, capture failure of the ventricular channel and of detection of both channels. The device was applied telemetry, which demonstrated an impedance of 560  $\Omega$  of the ventricular electrode and the defibrillation electrode of 54  $\Omega$ , absence of R and P waves' detection, and ventricular capture failure. The anteroposterior chest radiography (**Figure 2**) showed a retraction of the electrode, with location of the distal end at the level of the innominate vein, reeled around the generator, compatible with a Reel syndrome. There was neither antecedent in the patient of excessive manipulation of the generator, nor of the performance of repetitive postural vices.

When performing the surgical procedure for repositioning the electrode, a pocket sepsis was observed, with dehiscence of the electrode fixation



**Figure 1.** 12-lead electrocardiogram. Sinus rhythm, heart rate of 80 bpm. Failure to capture the ventricular channel and detection of both channels.



**Figure 2.** Anteroposterior chest radiography showing retraction of the electrode, with location of its distal end at the level of the innominate vein, reeled around the ICD generator.

points. The infected system was totally removed and no fracture of the electrode was found. The patient refused the reimplantation of a new system on the contralateral side, i.e., a treatment with quinidine sulfate, 200 mg every 8 hours, was started.

### COMMENT

The Twiddler and Reel syndromes are rare in patients who carry pacing cardiac systems. They take place by different mechanisms, but are a common cause of device dysfunction. In most Reel syndrome reports, the electrodes are displaced, without damage, unlike the Twiddler syndrome, where the rotation mechanism produces fractures of the cables<sup>4</sup>. In this patient was observed a displacement of the electrode to the innominate vein, with reel around the generator, but no fracture. The normal values of the

impedances' stimulation and defibrillation demonstrated the integrity of the probe.

The forms of presentation of these syndromes are variable and their prevalence is approximately 0.07%<sup>5</sup>. The displacement or fracture of the electrodes can cause detection failure, increase of the impedance or of the stimulation threshold, with capture failure and phrenic, brachial or pectoral stimulation. In ICD carriers can be presented failures in the detection by defect or excess, as well as the increase of the defibrillation threshold with ineffectiveness of the therapy<sup>6,7</sup>. The detection and capture failure had an asymptomatic course in this patient, non-dependent on pacing stimulation. No dysfunctions of the ICD therapy were registered either.

The chest radiography confirms the diagnosis when proving the generator rotation within the pocket, the displacement of the endocardial electrodes and the reel of them around the generator<sup>8</sup>.

In some cases, it has been possible to demonstrate excessive voluntary or involuntary manipulation of the generator by the patient, but in the vast majority, the cause is unknown. Nevertheless, there have been described the predisposing factors for the development of these syndromes, such as: female sex, older age, obesity, neuro-psychiatric disorders, repetitive postural vices, very large subcutaneous pockets, weight and size of the generator, the abdominal location and device replacement by another one smaller<sup>9,10</sup>.

Some measures are proposed at the time of the implantation, in order to prevent these syndromes, such as: fixing the generator to the muscle fascia and the electrodes with their corresponding fixing rings, locating the subpectoral generator, using a dacron bag and limiting the size of the pocket, although the latter measure may favor aseptic necrosis.

An infection in the first ICD implantation is rare and ranges from 0.45.0%, according to different series<sup>11</sup>. We consider that the loss of electrode fixing points as a result of the sepsis was the predisposing factor for the development of the Reel syndrome in this specific case<sup>9,12</sup>.

The early identification of patients with predisposing factors and regularly monitoring the functioning and location of the electrodes, telemetry and chest radiography, will guarantee an early diagnosis of these syndromes, and major complications due to device dysfunction are avoided.

## REFERENCES

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(8):371-3.
2. Veltri EP, Mower MM, Reid PR. Twiddler's syndrome: A new twist. *Pacing Clin Electrophysiol.* 1984;7(6 Pt 1):1004-9.
3. Carnero-Varo A, Pérez-Paredes M, Ruiz-Ros JA, Giménez-Cervantes D, Martínez-Corbalán FR, Cubero-López T, *et al.* "Reel syndrome": A new form of Twiddler's syndrome? *Circulation.* 1999;100(8):e45-6.
4. Munawar M, Munawar DL, Basalamah F, Pambudi J. Reel syndrome: A variant form of Twiddler's syndrome. *J Arrhythmia.* 2011;27(4):338-42.
5. Konishi H, Tokano T, Nakazato Y, Komatsu S, Suwa S, Komatsu K, *et al.* Twiddler's syndrome detected by patient's complaint of implantable cardioverter-defibrillator rotation in the subcutaneous pocket. *J Arrhythm.* 2012;28(4):239-41.
6. Patel MB, Pandya K, Shah AJ, Lojewski E, Castellani MD, Thakur R. Reel syndrome – not a twiddler variant. *J Interv Card Electrophysiol.* 2008;23(3):243-6.
7. Chemello D, Subramanian A, Cameron D. Twiddler syndrome with 180° rotation of an implantable cardioverter defibrillator generator resulting in malfunction of one of the shocking coils. *Europace.* 2009;11(10):1259.
8. Ramírez P, Barrero R, González R, Frangini P, Vergara I. Síndrome de Twiddler: una causa infrecuente de disfunción de marcapaso definitivo. *Rev Med Chile.* 2011;139(7):917-9.
9. Larrouse E, Rodríguez E, Moya A, Rodríguez O, Soler Soler J. Síndrome de Twiddler en un paciente portador de desfibrilador automático implantable: ¿una complicación evitable? *Rev Esp Cardiol.* 2001;54(12):1456-8.
10. Ejima K, Shoda M, Manaka T, Hagiwara N. Reel syndrome. *J Cardiovasc Electrophysiol.* 2009;20(7):822.
11. van Rees JB, de Bie MK, Thijssen J, Borleffs CJ, Schalijs MJ, van Erven L. Implantation-related complications of implantable cardioverter-defibrillators and cardiac resynchronization therapy devices: a systematic review of randomized clinical trials. *J Am Coll Cardiol.* 2011;58(10):995-1000.
12. Echeverri D, Barón AM, García JC, Ramírez JD. Síndrome de reel: una variante del síndrome de Twiddler. *Rev Colomb Cardiol.* 2015;22(3):153-5.