

症例報告

腹腔内へのペースメーカー migration 診断から 6か月後に 待機的抜去術を行った 1歳女児例

伊藤 智由希¹⁾, 白神 一博¹⁾, 佐藤 要¹⁾, 渡辺 恵子¹⁾, 小澤 由衣¹⁾, 高見澤 幸一¹⁾,
小川 陽介¹⁾, 田中 優¹⁾, 益田 瞳¹⁾, 松井 彦郎¹⁾, 柴田 深雪²⁾, 平田 康隆²⁾, 犬塚 亮¹⁾

¹⁾東京大学医学部附属病院 小児科

²⁾東京大学医学部附属病院 心臓外科

A Pediatric Case of Elective Removal Surgery at 6 Months after the Diagnosis of Pacemaker Migration into the Abdominal Cavity

Tomoyuki Ito¹⁾, Kazuhiro Shiraga¹⁾, Kaname Sato¹⁾, Keiko Watanabe¹⁾, Yui Ozawa¹⁾,
Koichi Takamizawa¹⁾, Yosuke Ogawa¹⁾, Yu Tanaka¹⁾, Hitomi Masuda¹⁾, Hikoro Matsui¹⁾,
Miyuki Shibata²⁾, Yasutaka Hirata²⁾, and Ryo Inuzuka¹⁾

¹⁾Department of Pediatrics, University of Tokyo Hospital, Tokyo, Japan

²⁾Department of Cardiac Surgery, University of Tokyo Hospital, Tokyo, Japan

In most pediatric cases of epicardial pacemaker implantation, generators are generally placed in the upper abdomen. Postoperative generator migration into the abdominal cavity is a serious complication that could lead to severe clinical conditions. Although generator placement in the rectus abdominis submuscular layer is sometimes preferred over placement in the supramuscular layer for infection prevention, it could increase the risk of intraperitoneal migration. We report the case of a 1-year-old girl who had a generator implanted in the upper abdomen, specifically in the rectus abdominis submuscular layer, that migrated into the abdominal cavity. The implant was removed after 6 months of follow-up. Intraoperative findings during implant removal showed that the lead was entangled with the large mesh and strongly adhered to it. This adhesion entrapped the intestinal tract and could lead to serious complications, including intestinal obstruction or perforation.

Keywords: pacemaker implantation, generator migration, epicardial pacing, submuscular implantation

心外膜リードを用いた小児のペースメーカー植込み術では generator 本体は上腹部に植込まれることが多い。術後の腹腔内への generator migration は重篤な病態に発展しうる重要な合併症である。皮膚の潰瘍形成・generator 露出リスク低減の観点から、generator は上腹部の腹直筋筋層上（皮膚直下）ではなく筋層下に植込まれることがあるが、筋層下に植込んだ場合には腹膜を隔てた腹腔内へ migration しやすくなる。今回、上腹部・腹直筋筋層下に留置した generator が腹腔内へ migration し、6か月間の経過観察後に抜去術を行った1歳女児例を経験したので報告する。抜去術時にはリードが大網と絡み合って強く癒着している術中所見を認めた。この癒着は腸管を巻き込み、腸閉塞や腸管穿孔といった重大な合併症をその後に引き起こす危険性があり、migration 状態での待機期間が長期間にわたるリスクを示唆する重要な所見と考えた。

2025年1月22日受付, 2025年7月9日受理

著者連絡先：犬塚 亮 (E-mail: inuzukar-tky@g.ecc.u-tokyo.ac.jp)

〒113-8655 東京都文京区本郷7-3-1 東京大学医学部附属病院 小児科

doi: 10.9794/jspccs.41.140

背景

小児に対する心外膜ペースメーカー植込み術（PMI; pacemaker implantation）後の合併症として generator migration が知られている。成人の場合、generator は左鎖骨下の皮下脂肪と筋層の間に通常植込まれ、胸郭によって下支えされるため、胸腔内への migration は生じにくい。一方で、小児に対する PMI の際には、電極は心外膜リードを用い、generator を前上腹部に植込むことが多い。前上腹部は胸郭のようなしっかりととした下支えがないため、腹腔内に migration しやすい。植込み部位の違いから、腹腔内への migration は小児に特徴的で¹⁾、乳幼児における generator migration の頻度は追跡期間 40.4か月で 5.8% (52 人中 3 人)との報告がある²⁾。一般的に腹腔内への migration では、腸閉塞や腸管穿孔などの重篤な消化器病変を伴う可能性があり手術介入を要する。今回、migration の診断から 6 か月後に待機的抜去術を行った際にリードが大網と絡み合って強く癒着している術中所見を認めた症例を経験したので報告する。

臨床経過

Double outlet right ventricle (DORV) の胎児診断のうち、在胎 31 週 6 日、体重は 1,239 g で出生した。出生後 subpulmonary ventricular septal defect (VSD) を伴う DORV, Coarctation of the Aorta (CoA) の診断となった。生後 4 日に肺動脈絞扼術を行ったのち、生後 3 か月時に Arterial Switch Operation・VSD closure・CoA repair を行った。術後は誘引なく洞徐脈および完全房室ブロックが出現し循環不全を繰り返した。徐脈時には術後留置していた temporary リードから AAI ペーシングを試みたが有効な pacing ができなかった。心停止も経験し、二度の体外式膜型人工肺管理を要した。冠動脈は Shaher 9 型で、右冠動脈孔は非常に小さな 2 つの開口部に分かれており、開口部異常・起始部狭窄と診断した。これに伴う sinus node dysfunction が一過性徐脈の原因と考えられたが、冠動脈起始部への介入は技術的に困難であったため、PMI の方針となった。術後 2 か月（生後 5 か月）時、体重 4.3 kg で心外膜リードを用いた PMI (Generator: Medtronic 社 Attesta ATSR01, 心室リード: Medtronic 社 CapSure Epi を使用し、single chamber pacing, bipolar pacing) を行った。徐脈時に房室ブロックを伴うため VVI (lower rate 90 bpm) で設定した。機種は自施設で選択できる機種の中で容積が最

小のものを選択した。generator は左上腹部腹壁の腹直筋筋層直下・腹膜上に植込まれた。前述の右冠動脈起始部狭窄および肺動脈分岐部狭窄に伴う両心室機能低下のため、人工呼吸器管理からの離脱に難渋し、7 か月時に気管切開術を行い、以降は人工呼吸器管理を継続している。慢性心不全のため栄養が進まず、体重は 4 か月時に 3.0 kg 台に到達、1 歳時は 4.6 kg と顕著な体重増加不良がみられた。また、運動発達遅滞がみられ、1 歳時点で寝返りができず入院管理中は仰臥位での長期臥床状態であった。PMI 後インピーダンスや刺激閾値の変化はみられていないかったが、1 歳 2 か月時、generator を皮下直下に触れず generator の migration を疑い、胸腹部レントゲン撮影を行った。正面像では generator の傾きの変化を認め、側面像では背側への migration、腹腔内 migration を認めた (Fig. 1)。migration と診断された時点では generator migration による重篤な合併症（腸閉塞や腸管穿孔などの消化器病変）は認めていなかったが、その後に生じる危険性を踏まえ、治療介入が必要と判断した。ただし、植込み術から 9 か月が経過しており既に generator 周囲はポケットを形成し、さらにレントゲンではリードのたわみもあまり変化ないことから、generator が腹腔内でさらに背側や尾側へ migration が進展する可能性は低いと考え、抜去術までの時間の猶予があると判断し、緊急抜去術は行わなかった。一方で、徐脈を呈し pacing を要する頻度は減少し、PMI から 4 か月後（生後 9 か月）以降はほぼ pacing を要さず、migration 診断時点で数か月間 pacing されていない状態であった。いったん退院し、自宅生活でも pacing が不要であることを確認する期間を設けて generator の留置継続は不要と判断し、migration の診断から 6 か月後の 1 歳 8 か月時に generator 抜去術を行った。

術中所見ではリードと大網とが絡み合って癒着が強かったものの、generator との癒着はなかった。植込み時には筋層直下・腹膜上に植込まれていた generator が、抜去時には腹膜直下、腹腔内へ migration していた (Fig. 2)。generator を抜去、リードは腹膜との癒着を剥離しつつ一部腹膜を切離して抜去した。その後、徐脈を呈することなく退院に至った。

考察

慢性心不全で長期臥床管理を行っていた児が PMI から 9 か月後に generator migration を来たした。migration の診断から 6 か月後に待機的な抜去術を行ったが、その際にリードが大網と絡み合って強く癒

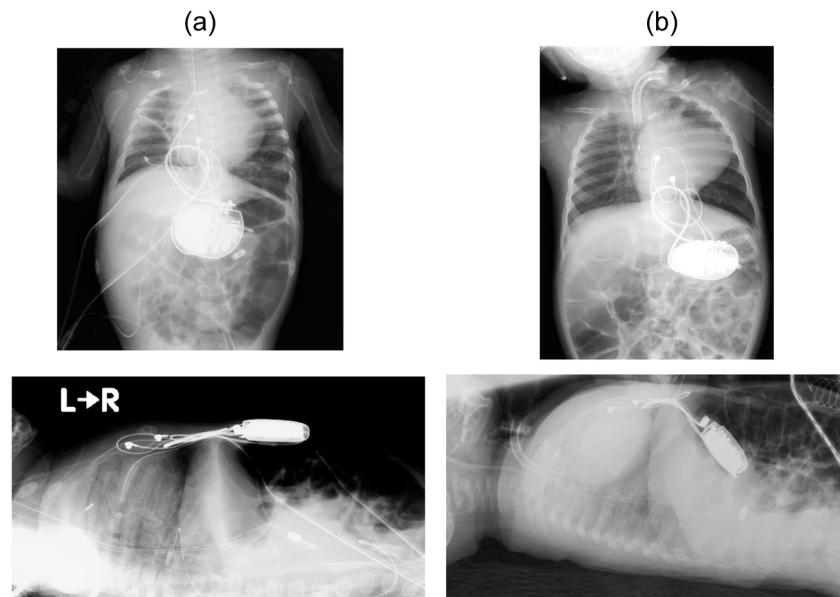


Fig. 1 PMI 後の胸腹部単純 X 線写真

(a) 植込み直後 (5 か月時), (b) 診断時 (1 歳 2 か月).

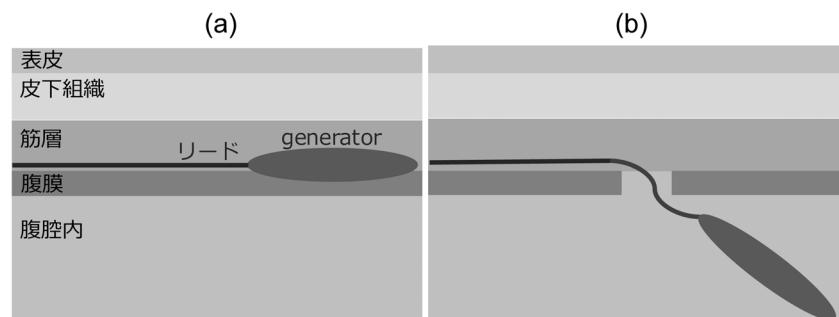


Fig. 2 植え込み時, 抜去時の模式図 (矢状断)

(a) 植込み時, (b) 抜去時.

着している術中所見を認めた。

新生児や乳児に対して PMI を行う場合、前上腹部皮下の筋層上に generator を植込む場合と筋層下に植込む場合がある。腹腔内への generator migration を予防する観点からは、generator の下支えが薄い腹膜だけになる筋層下よりも、筋層が generator の下支えとなる筋層上に generator を植込むほうがよい。一方で皮膚の圧迫壊死・潰瘍形成の観点からは優劣が逆転する。皮下直下である筋層上に植込んだ場合には皮膚の潰瘍形成が懸念され³⁾、その結果として generator の露出が引き起こされる可能性が考えられる。Generator の露出に伴って敗血症や骨髓炎などの重症感染症のリスクが上昇することが報告されており²⁾、露出した場合には感染の懸念からリードを含めた PM システム全体の抜去、再度の植込みを要する重大な事態となる⁴⁾。筋層上（皮下）よりも筋層下に植込む方

がこのリスクは低下するため、特に体重 10kg 以下の体格の小さな児では、皮膚の潰瘍形成・generator 露出リスク低減の観点から、腹腔内への migration のリスクは上がるものの筋層下に generator を植込むことが選択される⁵⁾。

Table 1 は小児期までに PMI を行い腹腔内への migration を引き起こした過去の報告に関してまとめたものである^{2,6-19)}。これは 2024 年 6 月時点での PubMed にて “pacemaker migration” と検索したものと、「ペースメーカー 脱落」と医中誌にて検索し該当した症例からまとめたものである。植込みから migration 発覚までの期間の中央値は 5.4 (1.8~6.9) 年と、植込みから長期間を経て発覚するという特徴があった (Table 1)。特に幼少時に植込みを行った症例では長期間経過後も migration への注意が必要と考える。migration の際に認める症状としては、腹痛や便秘、

Table 1 generator migration の報告例

症例	植込み時年齢	植込み時体格	診断時年齢	症状（合併症）	所見や発見された位置	介入時期	報告年	文献
1	生後 1 日		4 歳	失神	ダグラス腔	不明	2017	9)
2	生後 2 日	1.9kg	1 歳	大腿部筋収縮	後下腹膜内	不明	1999	6)
3	生後 2 週		10 歳	腹痛・嘔吐（癒着性腸閉塞）	右下腹腔内	緊急	1995	10)
4	生後 2 週		4 か月	なし	リードと大網が絡まり腹腔内	不明	2018	11)
5	新生児期		7 歳	腹痛	リードと周辺組織の癒着 S 状結腸付近	不明	2007	7)
6	新生児期		7 歳	腹痛	リードの断裂	不明	2008	12)
7	生後 8 週	2.3kg	5 か月	なし	記載なし	待機的（6 年後）	2020	2)
8	2 か月		2 歳	なし	リードの癒着	不明	2002	13)
9	2 か月		8 歳	便秘・腹部筋収縮	ダグラス窩	不明	2007	14)
10	5 か月	4.3kg	1 歳	なし	リードと大網の癒着	待機的	2024	自験例
11	6 か月		6 歳	なし	骨盤腔内で癒着	不明	2022	15)
12	8 か月		2 歳	発熱	直腸から排出	緊急	2006	16)
13	8 か月		2 歳	腹痛・下痢	直腸から排出	不明	2008	12)
14	9 か月		6 歳	皮膚炎症	記載なし	不明	2020	2)
15	10 か月	3.0kg	1 歳	嘔吐	ダグラス窩	不明	2020	17)
16	1 歳		5 歳	腹痛（腸管穿孔）	周囲との癒着	緊急	2005	8)
17	5 歳		9 歳	排尿時不快感	直腸付近リードと結腸の癒着	不明	2011	18)
18	幼児期		6 歳	腹痛（小腸癒着）	リードと小腸の癒着	不明	2008	12)
19	8 歳		8 歳	腹痛・嘔気（腸管穿孔）	S 状態結腸内膿瘍形成	緊急	2007	19)
20	11 歳		21 歳	発熱・腹痛（腸管穿孔）	結腸に膿瘍形成	緊急	2007	19)

介入時期に関しては筆者が以下の通り定義した。「緊急」当日に手術を行った、もしくは緊急手術を行ったと記載のある例、「待機的」介入まで数か月以上の期間を空けたことが記載されている例、「不明」介入の時期が不明である例。

嘔吐や下痢、直腸異物感など消化器症状・腹部症状が多いが、腸閉塞や腸管穿孔、小腸癒着により腸管の部分切除を要する症例など重篤な合併症を生じることもある^{8, 10, 19)}。

腹腔内への migration 報告例では全例で手術介入が行われていたが、手術介入時期には差がみられた（Table 1）。診断時点での腸閉塞や腸管穿孔といった合併症をきたしている場合には緊急の対応がとられている。一方で自験例のように無症状例では待機的に再植込み術が行われていた²⁾。本症例では migration の診断から 6 か月経過時点でリードが大網と絡み合って強く癒着している術中所見を認めた。この所見は腸閉塞や腸管穿孔のリスク因子である²⁰⁾。migration の診断から 6 か月経過時点では、腹膜との癒着が進んでいることが今回確認され、腸管合併症予防の観点から migration 診断後の経過観察は長期間にすべきではないと考えられた。

在胎 31 週 1,940g で生まれた早産児に対し、日齢 2 で PMI を行った例⁶⁾や、生後 2 か月時点 2.3kg と体重増加が不良な児に PMI を行った例²⁾、在胎 32 週で生まれ新生児期に PMI を行った例⁷⁾などが見られる。generator の大きさ・重さに対して、月齢・体格が小さいため腹膜が相対的に脆弱であることから腹腔内へ migration しやすくなると考えられる。低体重がゆえに筋層下に generator を植込む必要性が生じ、そ

のため腹腔内への migration をきたしやすくなっていると推定される。本症例は生後 5 か月時点での植込みであり、生後 3 か月未満の基準からは外れるが、植込み時の体重は 4.3kg であったことを踏まえると、通常の児の生後 1 か月相当であり、やはり体格が小さかったことがリスクファクターとなっていた可能性がある。

migration の診断には触診やレントゲン撮影が有用である。触診時に皮膚直下に generator を触れないことで migration を疑うことが可能である。疑った際にはレントゲン側面像の撮影にて容易に診断ができる。なお、本症例においては正面像での generator の角度異常からも migration を疑うことが可能であった。

結語

PMI 後の合併症として腹腔内への generator migration がある。migration 後、6 か月経過時点でリードと大網が強く癒着することが確認された。癒着により腸閉塞や腸管穿孔のリスクがあるため、migration 診断後の経過観察は長期間にすべきを考えた。

利益相反

本論文について日本小児循環器学会の定める利益相反に関する開示事項はありません。

著者の役割

伊藤智由希は筆頭著者として論文を執筆した。佐藤要、渡辺恵子、小澤由衣、高見澤幸一、小川陽介、田中優、益田瞳、松井彦郎、柴田深雪、平田康隆は循環器疾患の検査、診断判断を行い、論文執筆の指導を行った。白神一博、犬塚亮は循環器疾患の検査、診断判断を行い、論文執筆の指導、最終的な校正を行った。共著者全員が論文校正に貢献した。

付 記

本症例については、学会発表、論文投稿に関して患者の両親に説明し、同意を得ている。

引用文献

- 1) Li KS, Khwaja HA, Hayat TT, et al: A rare cause of abdominal pain. Ann R Coll Surg Engl 2007; **89**: W14–16
- 2) Wildbolz M, Dave H, Weber R, et al: Pacemaker implantation in neonates and infants: Favorable outcomes with epicardial pacing systems. Pediatr Cardiol 2020; **41**: 910–917
- 3) 打田俊司：小児のペースメーカ植込み術の特徴と問題点. 日小児循環器会誌 2011; **27**: 105–107
- 4) Cohen MI, Bush DM, Gaynor JW, et al: Pediatric pacemaker infections: Twenty years of experience. J Thorac Cardiovasc Surg 2002; **124**: 821–827
- 5) 鈴木孝明、福田豊紀、佐藤正昭、ほか：ステロイド溶出心外膜電極を用いてペースメーカー埋め込みを行った低体重児を含む2乳児例の経験. 日小児循環器会誌 1998; **14**: 554–557
- 6) Salim MA, DiSessa TG, Watson DC: The wandering pacemaker: Intraperitoneal migration of an epicardially placed pacemaker and femoral nerve stimulation. Pediatr Cardiol 1999; **20**: 164–166
- 7) Maddali MM, Valliattu J, Alsabti H, et al: Errant migrant: an unusual cause of abdominal pain. J Cardiothorac Vasc Anesth 2007; **21**: 906–907
- 8) Koch AME, Singer H: Unusual pacemaker migration. Eur Heart J 2005; **26**: 1941
- 9) Galand V, Schleich JM, Polin B, et al: Peritoneal migration of an epicardial pacemaker. Europace 2017; **19**: 1021
- 10) Gomez C, Dick MII 2nd, Hernandez R, et al: Peritoneal migration of an abdominally implanted epicardial pacemaker: A cause of intestinal obstruction. Pacing Clin Electrophysiol 1995; **18**: 2231–2232
- 11) 谷 一宏、村田 明、中垣彰太、ほか：乳児期に骨盤内へ脱落した新生児期ペースメーカ植込み術. 胸部外科 2018; **71**: 919–923
- 12) Sabti HI, Menon RG, Maddali MM, et al: Wandering permanent pacemaker generators in children: a case series. J Med Case Rep 2008; **18**: 163
- 13) Kroon TL, Witsenburg M, Bogerts AJJ: Pacemaker dislocation: Truly ectopic activation necessitating surgical treatment. Thorac Cardiovasc Surg 2002; **50**: 108–109
- 14) May JW, Shmorhun DP: Migration of an abandoned pacemaker generator into the pouch of Douglas in a child with complex congenital heart disease. Pacing Clin Electrophysiol 2007; **30**: 910–911
- 15) Alawami MH, Alzayer EA, Alqattan HM, et al: Laparoscopic extraction of a migrated pacemaker in a 6-year-old child: A case report. JTCVS Tech 2022; **16**: 227–230
- 16) Manikoth P, Qora HT, Sajwani MJ, et al: A mysterious journey of a cardiac pacemaker. Int J Cardiol 2006; **107**: 287–288
- 17) Kitaoka H, Asakai H, Nakano K, et al: Intra-peritoneal migration of an epicardial pacemaker causing recurrent vomiting. J Pediatr Cardiol Card Surg 2020; **4**: 90–92
- 18) Kravarusic D, Chirdan L, Freud E: Laparoscopic-assisted retrieval of migrated intra-abdominal pacemaker generator. Pediatr Cardiol 2011; **32**: 1196–1198
- 19) Dodge-Khatami A, Backer CL, Meuli M, et al: Migration and colon perforation of intraperitoneal cardiac pacemaker systems. Ann Thorac Surg 2007; **83**: 2230–2232
- 20) 松田恭典、李 栄柱、岸田 哲、ほか：線維性瘻着により小腸が切離された1例. 日臨外会誌 2013; **74**: 415–419