

Obstrucción intestinal causada por Tricobezoar: Síndrome de Rapunzel

Juan Anzieta V¹, Orlando Felmer E², Mauricio Gabrielli N²,
Francisco Venturelli M², Gonzalo Sánchez C²,
Carmen Torrijos C².

Intestinal obstruction due to a trichobezoar or Rapunzel Syndrome. Report of one case

Rapunzel syndrome or gastrointestinal trichobezoar is caused by hair ingestion. The diagnosis may be suspected in young females with important weight loss, who deny hair eating. We report a 16 year-old female consulting in the emergency room for abdominal pain. She was subjected to an exploratory laparotomy and a big mass was palpated in the stomach. A gastrostomy and enterostomy were performed and a 17 x 6 x 5 cm trichobezoar was extracted. The patient had an uneventful postoperative outcome and was derived to Psychiatry (Rev Méd Chile 2008; 136: 1027-30).

(Key words: Abdomen, acute; Bezoars; Gastric outlet obstruction)

Recibido el 29 de agosto, 2007. Aceptado el 26 de octubre, 2007.

¹Unidad de Emergencia, Hospital Clínico Regional de Valdivia, Chile. ²Instituto de Cirugía, Facultad de Medicina, Universidad Austral de Chile. Valdivia, Chile.

Los bezoares son colecciones de material extraño indigerible, acumulables en cualquier segmento del tracto gastrointestinal, de preferencia en estómago¹⁻⁹. Pueden presentarse de forma asintomática por un largo periodo antes de consultar.

Los tricobezoares corresponden a bezoares compuestos por pelos. Estos pueden descender desde el estómago hacia el intestino, incluso hasta el colon transverso, constituyendo el síndrome de Rapunzel¹⁰. Esta presentación corresponde a la

más severa de un tricobezoar, siendo potencialmente fatal.

Consideramos de interés comunicar el caso de una adolescente con un tricobezoar gastroyeyunal tipo Rapunzel asociado a obstrucción intestinal, resuelto quirúrgicamente, por su rara ocurrencia, su potencial gravedad, pudiendo llegar a ser fatal y constituir una emergencia quirúrgica. Se revisa la literatura en relación a esta patología.

Caso clínico. Paciente de 16 años de edad, sexo femenino, con antecedente de meningitis purulenta a los 6 años de vida, sin secuelas neurológicas evidentes, quien fue derivada a la Unidad de Emergencia del Hospital Clínico Regional de Valdivia.

Correspondencia a: Dr. Juan Anzieta V. Casilla 459. Valdivia. Chile. Fono: 63-213373. E mail: janzieta@telsur.cl

via (HCRV), con historia de cinco días de dolor abdominal progresivo, asociado a vómitos biliosos. En el examen físico destacó una paciente enflaquecida, temperatura axilar 37,5°C, con deshidratación moderada, importante distensión y dolor abdominal tipo cólico; con resistencia muscular abdominal difusa y signo de Blumberg en hemiabdomen inferior. El perfil bioquímico era normal. Una ecotomografía, practicada por cirujano de Urgencia, mostró una imagen hipoeoica retrovesical de moderada cuantía. Se ingresó con hipótesis diagnósticas de abdomen agudo y obstrucción intestinal. Horas más tarde, en mejores condiciones de hidratación, se realizó una laparotomía exploradora, visualizando regular cantidad de líquido citrino libre abdominal, principalmente en fondo de saco de Douglas, sin mal olor y asas de yeyuno dilatadas. En estómago se palpó gran masa consistente, maleable. Se realizó una enterostomía yeyunal extrayendo un tricobezoar de 6x4 cms (Figura 1) y gastrostomía (Figura 2) amplia para extraer molde del tricobezoar de 17 x 6 x 5 cm, el que fue examinado en Anatomía Patológica.

La paciente evolucionó favorablemente, siendo dada de alta al séptimo día postoperatorio, quedando en control en el Servicio de Psiquiatría con diagnósticos de: tricotilomanía, obstrucción intestinal por tricobezoar gastroyeyunal, personalidad en vías de estructuración anormal y ánimo depresivo.

DISCUSIÓN

Los bezoares constituyen una acumulación de alimento o material extraño no digerido en el tracto gastrointestinal, formando una masa¹⁻⁹. El término deriva de las palabras *badzahr*, *pahnzahr* y *beluzaar*, del árabe, persa y hebreo, que significan antídoto. Se conocen desde los siglos II y III a.C., relatándose su carácter medicinal desde el siglo XII a.c. al creer que éstos, obtenidos de animales, tenían poderes curativos^{2,3}. En 1779, Baudaman publicó el primer caso y la primera cirugía fue realizada por Schönbern, en 1883^{4,5}.

Las distintas denominaciones de los bezoares obedecen al tipo de sustancia que los componen, existiendo fitobezoares (los más frecuentes, compuestos por fibras vegetales), fármacobezoares,



Figura 1. Extracción de tricobezoar por enterostomía yeyunal.



Figura 2. Extracción de tricobezoar por gastrostomía. Se visualizan asas intestinales muy dilatadas.

tricobezoares, bezoares a cuerpo extraño y lactobezoares, estos últimos de exclusiva presentación en niños.

Los bezoares se localizan preferentemente en el estómago, pero se han descrito en todo el tracto gastrointestinal, compactándose y tomando el molde de la viscera que los contiene⁶⁻⁹.

Cuando los tricobezoares, o bezoares de pelo, atraviesan el píloro y obstruyen el duodeno, yeyuno, íleo, válvula ileocecal o incluso el colon, toman la denominación de síndrome de Rapunzel, término acuñado por Vaughan en 1968¹⁰. Se observan en mujeres en 90% de los casos y en

menores de 30 años en 80%⁵. La causa de éstos es la tricotilomanía (compulsión a arrancarse el propio cabello) asociada a tricofagia (ingerir-cabello) siendo objetivable en menos de 50% de los casos¹¹. Se estima que uno de cada 2.000 niños sufre de tricotilomanía y 5% a 18% de tricofagia, pero pocos presentan tricobezoares. La incidencia de tricobezoar no es clara, considerándose que existirían algunos factores predisponentes además de la ingesta de pelo; como la longitud del cabello, la cantidad de cabello ingerido, disminución del peristaltismo, alteración de la mucosa y secreción ácida; disminución del pH gástrico, ingestión de sustancias alcalinas y enzimas pancreáticas, contenido de grasa en la dieta, post-gastrectomía, gastroparesia diabética, distrofia miotónica y vagotomía secundaria a invasión tumoral¹².

Se sugiere que el cabello es atrapado en los pliegues gástricos y retenido debido a una insuficiente superficie de fricción, la cual es necesaria para la propulsión. Producto de la desnaturalización de las proteínas del pelo, por acción del jugo gástrico, el cabello ingerido siempre se torna de color negro independiente de su color original⁸.

Sus manifestaciones clínicas son variadas, presentándose de forma asintomática por un largo período antes de consultar. Habitualmente, el paciente niega u oculta información respecto a tricofagia, que puede asociarse con alopecia. Existe sensación de saciedad precoz, náuseas, vómitos, constipación, debilidad, baja de peso, halitosis, hematemesis, molestias abdominales inespecíficas y síntomas obstructivos. La sintomatología depende de la elasticidad del estómago, del tamaño del bezoar y de la aparición o no de complicaciones¹³. La mayoría de las revisiones refieren que todos los pacientes presentan algún tipo de alteración psiquiátrica, desde la ansiedad crónica hasta el retardo mental¹⁴.

El síndrome de Rapunzel es la forma de presentación más severa de un tricobezoar, siendo potencialmente fatal. Su nombre evoca el cuento de los hermanos Wilhem y Jacob Grimm escrito en 1812. Una joven lanzaba su larga cabellera para que por ella, su enamorado príncipe subiera a la torre donde se encontraba prisionera. Este síndrome está dado por la presencia de una gran bola de cabello, adherida a los pliegues gástricos por

fenómeno de tensión superficial, constituyendo el núcleo del tricobezoar. Resistente a los jugos gástricos puede una porción de él, avanzar por el tubo digestivo hasta ser evacuado, o producir una obstrucción intestinal⁴. La diferencia de presiones entre el borde mesentérico del intestino relativamente fijo comparado con el del borde antimesentérico móvil, sumado a la tensión por el peristaltismo produce un efecto de acordeón que lleva a necrosis isquémica y perforación del intestino delgado^{8,11}.

El diagnóstico se realiza mediante ecotomografía, radiología con bario y endoscopia digestiva alta. La ecografía muestra una banda ancha de ecos de gran amplitud con sombra acústica posterior. El estudio radiológico muestra el bario rodeando una masa que generalmente flota en suspensión, lo cual lo diferencia de un tumor maligno. También se visualiza cómo el bario queda atrapado en el intersticio del bezoar dando una imagen de «superficie en panal de abejas». La endoscopia digestiva alta constituye el método diagnóstico de elección por visión directa, siendo en algunos casos también terapéutica y de mayor rendimiento al radiológico, que sólo diagnostica una cuarta parte de los casos identificados endoscópicamente. La tomografía computada abdominal con medio de contraste oral es mucho más sensible que la radiología tradicional^{1,8}. El diagnóstico diferencial de la masa epigástrica es con pseudoquiste pancreático, neuroblastoma, riñón en herradura, tumores gástricos, hepatomegalia y esplenomegalia¹².

Se describen tres formas de terapia de los bezoares: la disolución química, la remoción quirúrgica y la remoción endoscópica. La elección se basa en el tamaño y la composición del bezoar, siendo el objetivo de éste su remoción y prevención de recurrencia^{11,15}.

En el caso de los tricobezoares el tratamiento de elección será siempre quirúrgico, acompañado de tratamiento psiquiátrico¹⁶. Respecto al tratamiento médico (disolución química o enzimática) existe discrepancia en la literatura, considerándose de elección en fitobezoares¹⁷.

Se han descrito múltiples técnicas para el manejo endoscópico de esta patología con resultados diversos, describiéndose en la literatura la fragmentación y remoción con fórceps, asa de

polipectomía, hidroclisis, láser, litotripsia mecánica, litotripsia electro hidráulica o litotripsia extracorpórea con onda de choque, pero la eliminación endoscópica es tediosa y es necesario contar con endoscopios de canal de trabajo amplio^{1,8,18}.

En caso de bezoares grandes y compactos, por no ser factible su extracción endoscópica, el abordaje quirúrgico será de elección, el cual puede ser laparoscópico o clásico. Se realiza una gastrotomía longitudinal al eje mayor del estómago, amplia para provocar el "parto" del bezoar. No obstante, en el síndrome de Rapunzel se debe tener una especial consideración debido a que generalmente son necesarias múltiples enterotomías para la completa remoción del bezoar.

Entre las complicaciones se presenta la ictericia obstructiva debida a la extensión del bezoar hacia el duodeno comprometiendo la ampolla de Vater¹⁹, enteropatía perdedora de proteínas y anemia megaloblástica, asociadas a sobrecrecimiento bacteriano en el intestino delgado, úlcera,

perforación intestinal, u obstrucción e intususcepción.

Existiendo complicaciones como perforación o hemorragia, la cirugía clásica es de elección, y en caso de asociarse a úlcera no es necesario hacer tratamiento quirúrgico de ésta, ya que la extracción del bezoar recupera la lesión.

La recurrencia se presenta en 14% a 20%¹⁴, especialmente en pacientes con alteraciones psiquiátricas y con cirugía gástrica. Se recomienda seguimiento psiquiátrico para disminuir la frecuencia de recurrencias²⁰.

En conclusión, el tricobozoar tipo Rapunzel es de rara ocurrencia y variada manifestación. El método diagnóstico de elección es la endoscopia digestiva alta, que permite visualizar el bezoar y confirmar su composición. En esta paciente se presentó como una obstrucción intestinal, lo que llevó a una laparotomía exploradora, siendo el Rapunzel un hallazgo quirúrgico con exitosa resolución. El seguimiento de estos pacientes y el tratamiento de las patologías de base permitirán disminuir su recurrencia.

REFERENCIAS

- O'SULLIVAN MJ, MCGREAL G, WALSH JG, REDMOND HP. Trichobozoar. *J R Soc Med* 2001; 94: 68-70.
- DEBAKEY M, OCHSNER A. Bezoar and concretions. *Surgery* 1938; 4: 934-63.
- SÁNCHEZ G, BOHLE J, CÁRCAMO C, MASSRI D. Tricobozoar Gástrico: Caso Clínico y revisión de la literatura. *Cuad Cir* 2006; 20: 48-51.
- ALVARADO R, URIBE E, GALLEGO J. Tricobozoar. Presentación de dos casos. *Acta Pediatr Mex* 2001; 22: 264-7.
- VELASCO B, PAREDES R. Tricobozoar: Un problema psicológico. *An Esp Pediatr* 2001; 55: 383-4.
- GUPTA R, SHARE M, PINEAU BC. Dissolution of an esophageal bezoar with pancreatic enzyme extract. *Gastrointest Endosc* 2001; 54: 96-9.
- FRAGOSO T, FRAGOSO E, DIAZ T. BEZOARES. Temas de actualización. *Rev Cubana Pediatr* 2002; 7477-82.
- HALL JD, SHAMI VM. Rapunzel's syndrome: gastric bezoars and endoscopic management. *Gastrointest Endosc Clin N Am* 2006; 16: 111-9.
- DUBOSE V, SOUTHGATE M, HILL J. Lactobezoars: a patient series and literature review. *Clin Pediatr* 2001; 40: 603-6.
- LOJA D, ALVIZURI J, VILCA M, SÁNCHEZ M. Síndrome de Rapunzel: tricobozoar gastroduodenal. Anales de la Facultad de Medicina, Universidad Nacional Mayor de San Marcos 2003; 64: 71-7.
- LEE J. Bezoars and foreign bodies of the stomach. *Gastrointest Endosc Clin N Am* 1996; 6: 605-19.
- GUTIÉRREZ JO. Tricobozoar gástrico. *Rev Colomb Cirugía* 2000; 15: 30-2.
- WOLFSON PJ, FABIUS RJ, LEIBOWITZ AN. The Rapunzel syndrome: An unusual trichobozoar. *Am J Gastroenterol* 1987; 82: 365-7.
- ROBLES R, PARRILLA P, ESCAMILLA C, LUJAN JA, TORRALBA JA, LIRON R, MORENO A. Gastrointestinal bezoars. *Br J Surg* 1994; 81: 1000-1.
- ANDRUS CH, PONSKY JL. Bezoars: classification, pathophysiology, and treatment. *Am J Gastroenterol* 1988; 83: 476-8.
- LANOUE JL, ARKOVITZ MS. Images in clinical medicine. Tricobozoar in a four-year-old girl. *N Engl J Med* 2003; 348: 1242.
- KLIPPEL A, KESSLER E, SCHEIN M. Rapunzel syndrome causing gastric emphysema and small bowel obstruction. *Surgery* 2003; 133: 120-1.
- KUO JY, MO LR, TSAI CC, CHOU CY, LIN RC, CHANG KK. Nonoperative treatment of gastric bezoars using electrohydraulic lithotripsy. *Endoscopy* 1999; 31: 386-8.
- YIN WY, LIN PW, HUANG SM, LEE PC, LEE CC, CHANG TW, YANG YJ. Bezoar manifested with digestive and biliary obstruction. *Hepatogastroenterology* 1997; 44: 1037-45.
- DIE TRILL J, LOSA BOÑAR N, LÓPEZ HERVÁS P, REY IBARRA A, DEVESA MÚGICA M. Tricobozoar. *Rev Chilena de Cirugía* 2007; 59: 173-4.