

Síndrome de Rapunzel con doble tricobezoar. Reporte de caso.

Rapunzel syndrome with double trichobezoar. Clinical case report

Adrián Dersu Pliego-Ochoa,* Eduardo Escalante-Ayuso,** Edgar Rafael Méndez-Pérez*

Palabras clave:

Bezoares/patología,
bezoares/cirugía,
tricobezoar,
obstrucción
intestinal/etiología,
gastrostomía/métodos,
tricotilomanía/
complicaciones.

Keywords:

Bezoars/pathology,
bezoars/surgery,
trichobezoar,
intestinal
obstruction/etiology,
gastrostomy/methods,
trichotillomania /
complications.

RESUMEN

Introducción: El síndrome de Rapunzel es una entidad no frecuente que consiste en un tricobezoar gástrico con extensión a duodeno acompañado de síntomas de oclusión intestinal, aumentando los riesgos de complicaciones como perforación y peritonitis. **Caso clínico:** Femenino de 15 años con cuadro clínico de dolor abdominal de dos semanas de evolución, asociado a náuseas, emesis, saciedad temprana y disminución en la consistencia de las evacuaciones. Refiere hábitos de tricotilomanía y tricofagia de un año de evolución. A la exploración física, abdomen distendido con peristalsis disminuida y sin datos de irritación peritoneal. En los estudios de imagen se observa una masa ocupativa en el estómago y primera porción del duodeno, así como niveles hidroáereos. Se realiza manejo quirúrgico mediante laparotomía encontrando un tricobezoar gástrico, además de otro en yeyuno, efectuándose la extracción completa mediante gastrotomía y enterotomía. Se inició la dieta enteral a las 72 horas y es egresada del servicio al séptimo día del postoperatorio. **Conclusión:** Los bezoares se pueden resolver por métodos no quirúrgicos; sin embargo, se debe valorar el estado hemodinámico del paciente; se recomienda el manejo quirúrgico con buenos resultados. Es necesario un manejo multidisciplinario con este tipo de pacientes para prevenir su recurrencia.

ABSTRACT

Introduction: Rapunzel syndrome is a rare entity that consists of a gastric trichobezoar with extension to the duodenum and accompanied by symptoms of intestinal occlusion, increasing the risk of complications such as perforation and peritonitis. **Case report:** A 15-year-old female with a clinical of abdominal pain of two weeks of evolution, associated with nausea, emesis, early satiety and a decrease in the consistency of the stools. It refers to trichotillomania and trichophagia habits of one year of evolution. On physical examination, distended abdomen with decreased peristalsis and no evidence of peritoneal irritation. Imaging studies show an occupational mass in the stomach and first portion of the duodenum, as well as hydro-aerial levels. Surgical management was performed by laparotomy, finding a gastric trichobezoar in addition to another one in the jejunum, performing the complete extraction through gastrotomy and enterotomy. Enteral diet started at 72 hrs. And is a graduate of the service on the seventh day of the postoperative period. **Conclusion:** Bezoars can be resolved by non-surgical methods; however, the patient's hemodynamic status should be assessed; surgical management is recommended with good results. Multidisciplinary management with this type of patients is necessary to prevent recurrence.

INTRODUCCIÓN

Se denomina bezoar al cuerpo extraño que se forma en la cámara gástrica tras la ingesta de sustancias no digeribles como: papel, almidón, resinas, fibras, semillas, cabello y otros. Asimismo, se clasifican de acuerdo con su composición principal, siendo el tricobezoar (cabello) el más frecuente en el 50% de los casos, seguido del fitobezoar (materiales vegetales) con un 40% de presentación.¹

Cabe mencionar que el tricobezoar aparece en personas con trastornos psiquiátricos y de personalidad que se acompañan de tricotilo-

manía y tricofagia, principalmente. La oclusión intestinal como complicación mecánica del bezoar es una de las causas de ingreso hospitalario en 4-10% de los casos; asimismo, se asocia a complicaciones como ulceraciones, perforación e intususcepción con una mortalidad hasta de 30%.²

El síndrome de Rapunzel, término acuñado en 1969 por el Dr. Vaughan y cols., es una entidad rara y compleja que consiste en un tricobezoar gástrico con extensión del mismo a duodeno e intestino delgado acompañado de síntomas de oclusión intestinal, aumentando los riesgos de complicaciones como perforación y peritonitis.^{3,4}

* Residente de Cirugía General.
** Cirujano General adscrito.

Servicio de Cirugía General, Hospital General "Dr. Agustín O'Hanlon", Mérida, Yucatán.

Recibido: 12/03/2018
Aceptado: 29/08/2018

Los síntomas característicos son dolor abdominal en 70% de los casos, náuseas, vómito en 64%, pérdida de peso en 38% y alteraciones en la deposición de heces en 32% de los casos, respectivamente; además de anorexia, dispepsia, malestar general, debilidad y saciedad temprana. A la exploración física existen zonas de alopecia, halitosis y se puede palpar una masa abdominal móvil y de bordes definidos en el epigastrio en 88% de los casos.⁵⁻⁹

CASO CLÍNICO

Femenino de 15 años de edad que ingresa al Servicio de Urgencias por cuadro clínico de dolor abdominal tipo cólico generalizado de dos semanas de evolución, asociado a náuseas, emesis en múltiples ocasiones, saciedad temprana y disminución en la consistencia de las evacuaciones. Cabe señalar que, como antecedentes de importancia, niega enfermedades crónicas degenerativas y no cuenta con antecedentes quirúrgicos; como dato importante, refiere padecer los hábitos de tricotilomanía y tricofagia de un año de evolución, así como trastorno depresivo y de ansiedad, en tratamiento médico por parte de psiquiatría.

Refiere agudización de los síntomas con aumento en la frecuencia de la emesis de característica fecal y ausencia de evacuaciones. A la exploración física, paciente consciente, orientada, afebril, signos vitales en parámetros normales; abdomen distendido, a la auscultación peristalsis disminuida de tonalidad metálica; dolorosa y poco depresible a la palpación, con plastrón en epigastrio y sin datos de irritación peritoneal.

Se realizan radiografías simples de abdomen en dos posiciones, las cuales muestran datos de oclusión intestinal. Se efectúa tomografía axial computarizada simple y contrastada de abdomen, en la que se observa una masa ocupativa en la totalidad del estómago y primera porción del duodeno, así como niveles hidroaéreos y dilatación de las asas intestinales.

Se inicia manejo mediante colocación de sonda nasogástrica para descompresión obteniendo gasto fecal de aproximadamente 200 cm³. Se realiza manejo quirúrgico mediante laparotomía y gastrotomía (Figura 1), visualizando tricobezoar que ocupa la totalidad de la cámara gástrica y primera porción duodenal. Se

logra extracción completa (Figura 2) y se repara mediante gastrorrafia en dos planos; utilizando puntos invaginantes de Connell para el plano interno y puntos seromusculares de Lembert en el plano externo (Figura 3), además se deja sonda nasogástrica transpilórica. Posteriormente, se completa la exploración del tracto intestinal encontrando obstrucción intraluminal completa a 40 cm del ángulo de Treitz (Figura 4), por lo que se realiza enterotomía extrayendo un segundo tricobezoar de aproximadamente 5 × 3 cm (Figura 5) y se repara defecto con enterorrafia en dos planos con técnica de Heineke-Mikulicz (Figura 6).

La evolución postquirúrgica fue favorable, se inició la dieta enteral a las 72 horas



Figura 1: Extracción de tricobezoar gástrico.



Figura 2: Tricobezoar gástrico.



Figura 3: Gastrorrafia en dos planos.



Figura 5: Extracción de tricobezoar en yeyuno.



Figura 4: Localización de segundo tricobezoar.



Figura 6: Enterorrafia en dos planos.

y es egresada del servicio al séptimo día del postoperatorio; tolerando dieta, presentando evacuaciones y con herida quirúrgica afrontada y sin datos de infección.

DISCUSIÓN

El diagnóstico de esta patología es un reto, ya que sólo en 50% de los casos se obtiene el dato de tricofagia, por lo que los antecedentes de trastornos psiquiátricos, las placas de alopecia, la presencia de halitosis y síndrome anémico con pérdida de peso deben hacer sospechar su presentación. Otro punto importante es el

tiempo de formación del tricobezoar, ya que el cabello ingerido se acumula en los pliegues gástricos y se mezcla con moco, pepsina, colonias bacterianas y ácido clorhídrico con la posterior desnaturalización de proteínas; proceso que puede llevarse a cabo en el transcurso de meses y/o años.

La endoscopia es el estudio de elección para el diagnóstico de un bezoar.¹⁰ La tomografía axial computarizada contrastada de abdomen tiene una sensibilidad del 81% y una especificidad de 96% para establecer el

diagnóstico; además, nos permite diferenciar el bezoar de una neoplasia, indicándonos su tamaño, forma y localización.¹¹

Los bezoares gástricos se pueden resolver por métodos no quirúrgicos (endoscopia, acetilcisteína, bebidas carbonatadas, celulosa, entre otros);¹²⁻¹⁴ sin embargo, se debe valorar el tamaño del bezoar, la presencia o no de complicaciones asociadas y principalmente el estado hemodinámico del paciente. En los bezoares intestinales, debido al alto porcentaje de fracaso de los tratamientos endoscópicos, se recomienda el manejo quirúrgico mediante laparotomía o laparoscopia con buenos resultados.

Se recomienda manejo multidisciplinario para prevenir su recurrencia de hasta 20% en un periodo de cinco a 20 años.¹⁵

CONCLUSIONES

Siempre será necesario un manejo multidisciplinario y seguimiento tanto clínico como psiquiátrico con este tipo de pacientes para prevenir su recurrencia; nuestra paciente contaba con antecedentes de depresión y ansiedad, por lo que recibió apoyo psicológico durante su estancia intrahospitalaria y continuó siendo manejada de manera externa.

REFERENCIAS

1. Parilli JC, Gómez TA, Rincon N, Berrios C. Trichobezoar: an unusual diagnosis. Report of 3 cases. GEN. 1995; 49: 40-41.
2. Yau KK, Siu WT, Law BK, Cheung HY, Ha JP, Li MK. Laparoscopic approach compared with conventional open approach for bezoar-induced small-bowel obstruction. Arch Surg. 2005; 140: 972-975.
3. Watt C, Harner J. Bezoars causing acute intestinal obstruction. Ann Surg. 1947; 126: 56-63.
4. Zamir D, Goldblum C, Linova L, Polychuck I, Reitblat T, Yoffe B. Phytobezoars and trichobezoars a 10-year experience. J Clin Gastroenterol. 2004; 38: 873-876.
5. Chaudhury S, John TR, Ghosh SR, Mishra GS. Recurrent trichobezoar in a case of the trichotillomania. Indian J Psychiatry. 2001; 43: 340-341.
6. Loja D, Alvizuri J, Vilca M, Sánchez M. Síndrome de Rapunzel: tricobezoar gastroduodenal. An Fac Med. 2003; 64: 71-77.
7. Chogle A, Bonilla S, Browne M, Madonna MB, Parsons W, Donaldson J, et al. Rapunzel syndrome: a rare cause of biliary obstruction. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2010; 51: 522-523.
8. Lopes LR, Oliveira PS, Pracucho EM, Camargo MA, De Souza CN, Andreollo NA. The Rapunzel syndrome: an unusual trichobezoar presentation. Case Rep Med. 2010; 2010: 841028.
9. Gonuguntla V, Joshi DD. Rapunzel syndrome: a comprehensive review of an unusual case of trichobezoar. Clin Med Res. 2009; 7: 99-102.
10. Ho TH, Koh DC. Small-bowel obstruction secondary to bezoar impaction: A diagnostic dilemma. World J Surg. 2007; 31: 1072-1078.
11. Ulusan F, Koç Z, Törer N. Small bowel obstructions secondary to bezoars. Ulus Trauma Acil Cerrahi Derg. 2007; 13: 217-221.
12. Palanivelu C, Rangarajan M, Senthilkumar R, Madankumar Mv. Trichobezoars in the stomach and ileum and their laparoscopy-assisted removal: a bizarre case. Singapore Med J. 2007; 48: e37-39.
13. Kan J, Huang TJ, Heish JS. Laparoscopy-assisted management of jejunal bezoar obstruction. Surg Laparosc Endosc Percutan Tech. 2005; 15: 297-298.
14. Lin Ch, Tung Ch, Peng Y, Chow W, Chang Ch, Hu W. Successful treatment with a combination of endoscopic injection and irrigation with coca cola for gastric bezoar-induced gastric outlet obstruction. J Chin Med Assoc. 2008; 71: 49-52.
15. Tiwary SK, Kumar S, Khanna AK. Recurrent Rapunzel syndrome. Singapore Med J. 2011; 52: 128-130.

Correspondencia:

Adrián Dersu Pliego-Ochoa

Residente de cuarto año en Cirugía General, Hospital General "Dr. Agustín O'Horán", Av. Itzaes s/n x Av. Jacinto Canek, Col. Centro, 97000, Mérida, Yucatán, México. Tel: 01-999-930-3320, exts. 45500, 45600, Cel: 99-9129-0385

E-mail: andersu.po@gmail.com