

# Tricobezoar y Síndrome de Rapunzel. Reporte de tres casos

Dres. J. Lagos, P. Claire, V. Linacre, M. Recavarren

Hospital de Niños Exequiel González Cortés, Santiago de Chile

## Resumen

*Los bezoares son masas digestivas intraluminales conformadas por material exógeno ingerido. El más frecuente en la edad pediátrica es el tricobezoar, que habitualmente se relaciona con trastornos psiquiátricos, siendo más frecuente en niñas adolescentes. Un tipo especial es el llamado Síndrome de Rapunzel, tricobezoar que se prolonga hasta el intestino delgado e incluso el colon, constituyendo una rara patología con no más de 13 casos publicados hasta el año 2002. Se presentan tres casos de tricobezoares ingresados al Servicio de Cirugía, entre el año 2000 y 2002, en el Hospital de niños Exequiel González Cortés. El primer caso corresponde al de una adolescente de 14 años que debutó con dolor abdominal y vómitos fecaloideos. Operada de urgencia con diagnóstico de peritonitis se encontró una masa intraluminal, conformada por pelos que ocluía la luz intestinal. El segundo caso corresponde al de una niña de 14 años, que consultó por dolor abdominal epigástrico tipo cólico y una masa en hipocondrio izquierdo de un año de evolución. Se estudió con ecografía, tránsito intestinal y endoscopia alta, diagnosticándose un tricobezoar gástrico gigante. Se extrae, mediante cirugía, un tricobezoar de 28 por 10 centímetros. El último caso es el de una niña de 10 años que se presentó con dolor abdominal recurrente de 7 meses de evolución, al que se agrega vómitos profusos por lo que debe ser intervenida de urgencia encontrando una masa de pelos intragástrica que se prolongaba hasta el yeyuno, conformando un segundo tricobezoar. Se extraen por gastrotomía y yeyunotomía respectivamente. En los tres casos se destaca la ausencia de patología psiquiátrica evidente y el antecedente de tricofagia. Los tricobezoares constituyen una rara patología, que se presenta con dolor abdominal recurrente, generalmente en una adolescente con antecedentes de tricofagia. Suelen asociarse a síndrome de malabsorción con hipoproteïnemia, anemia ferropénica, y baja de peso. Pueden complicarse con obstrucción, perforación intestinal o hemorragia digestiva; cuando esto ocurre la mortalidad alcanza hasta un 47%, según algunas publicaciones. El tratamiento de los tricobezoares es eminentemente quirúrgico, mediante la extracción de los mismos.*

**Palabras clave:** Tricobezoar - Síndrome de Rapunzel

## Summary

*Bezoars are intestinal intraluminal masses composed of non-nutritional ingested elements. During childhood, most of them are trichobezoars (composed of hair) usually related to psychiatric disorders, especially in teenagers. One special type of bezoars is the one called Rapunzel Syndrome, in which the trichobezoar extends to the small and sometimes the large bowel. This is an uncommon entity with no more than 13 cases reported until 2002. We herein present a series of 3 trichobezoars treated in our hospital between 2000 and 2002. The first case is a 14 year old girl with an acute onset of abdominal pain and vomits. Emergency surgery was performed, finding an intraluminal mass, composed of hair that occupied the entire bowel lumen. The second case is a 14 year old girl complaining of epigastric colicky abdominal pain and a left sub costal mass. Abdominal ultrasound, barium meal and upper gastrointestinal endoscopy showed a 28 x 10 cm gastric trichobezoar that was surgically removed. The last case was a 10 year old girl with a 7 months history of recurrent abdominal pain who started with profuse vomits requiring an exploratory laparotomy. An intra-gastric mass that extending along the jejunum was removed by means of a gastrotomy and a jejunotomy. Neither psychiatric disorders nor trichophagia were detected in any patient. In summary, trichobezoars are uncommon masses that produce recurrent abdominal pain, and are generally found in teenage girls with histo-*

ry of trichophagia. They are associated with malabsorption, hypoproteinemia and weight loss. They can cause complications such as intestinal obstruction, perforation and bleeding. The surgical removal of the trichobezoar is the treatment of choice.

**Index words:** Trichobezoar - Rapunzel Syndrome

## Resumo

Os bezoares são massas digestivas intra-luminais formadas por material exógeno ingerido. Na idade pediátrica é mais comum o tricobezoar, que habitualmente está relacionado com transtornos psiquiátricos, sendo mais freqüentes em meninas adolescentes. Um tipo especial é a chamado de síndrome de Rapunzel, tricobezoar que se prolonga até o intestino delgado e inclusive o cólon, constituindo uma afecção rara com não mais que 13 casos publicados até o ano de 2002. Apresentam-se três casos de tricobezoares internados no Serviço de Cirurgia, entre os anos de 2000 e 2002, no Hospital de Niños Exequiel Gonzáles Cortés. O primeiro caso é de uma adolescente de 14 anos que apresentou dor abdominal e vômito fecalóides. Operada de urgência, com diagnóstico de peritonite, encontrou-se uma massa intra-luminal, formada por pêlos que ocluía a luz intestinal. O segundo caso é de uma menina de 14 anos, que consultou por dor abdominal epigástrica, tipo cólica, e uma massa no hipocôndrio esquerda de um ano de evolução. Foi estudada com ecografia, trânsito intestinal e endoscopia alta, sendo diagnosticado tricobezoar gástrico gigante. Retirou-se, mediante tratamento cirúrgico, um tricobezoar de 28 por 10 centímetros. O último caso é de uma menina com 10 anos que se apresentou com dor abdominal recorrente, com 7 meses de evolução, associada a vômitos profusos, necessitando ser operada de urgência, encontrando-se uma massa intragástrica que se prolongava até o jejuno, formando um segundo tricobezoar. Foram retirados por gastrotomia e jejunotomia, respectivamente. Nos três casos destaca-se a ausência de doença psiquiátrica evidente e antecedente de tricofagia. Os tricobezoares constituem uma patologia rara, que se apresenta com dor abdominal recorrente, geralmente em uma adolescente com antecedentes de tricofagia. Podem associar-se a síndrome de má-absorção com hipoproteinemia, anemia ferropênica e baixo peso. Podem complicar com obstrução ou perfuração intestinais ou hemorragia digestiva; quando isto ocorre à mortalidade alcança 47%, segundo algumas publicações. O tratamento dos tricobezoares é eminentemente cirúrgico, mediante a retirada dos mesmos.

**Palavras-chave:** Tricobezoar - Síndrome de Rapunzel

## Introducción

Los bezoares son masas formadas por material exógeno ingerido que afectan al tracto gastrointestinal alto, principalmente el estómago<sup>1-4</sup>. El término bezoar deriva del árabe badzher o del persa padzhar que significa antídoto. Los bezoares son principalmente de 4 tipos: 1) fitobezoares, materiales vegetales no digeridos, 2) tricobezoares, constituidos por pelos ingeridos, 3) lactobezoares, 4) diversos, por ejemplo derivados de medicamentos como aluminio, magnesio, cimetidina o resinas<sup>5</sup>. Un tipo especial es el llamado Síndrome de Rapunzel<sup>1,6</sup>, en el que un tricobezoar gástrico se prolonga hasta el intestino delgado e incluso el colon. Los tricobezoares constituyen una patología de rara ocurrencia, por lo que la aparición de tres casos clínicos en dos años, motivó realizar esta revisión.

## Presentación de los casos

**Caso 1:** Paciente de 14 años, sexo femenino, sin antecedentes mórbidos de importancia, derivada por cuadro de 8 días de evolución, caracterizado por tos productiva y dolor abdominal difuso, agregándose vómitos fecaloideos sin fiebre. Al examen físico mostraba distensión abdominal leve, ruidos hidroaéreos aumentados y bazuqueo. Se hospitalizó con diagnóstico de abdomen agudo y sospecha de obstrucción intestinal. De los exámenes de ingreso se destacaban: Na 120 meq/lt, K 2.4 meq/lt, Cl 84 meq/lt, gases en sangre arterial compatibles con alcalosis metabólica y una radiografía de abdomen simple que mostraba dilatación de asas intestinales y niveles hidroaéreos. Tanto por historia clínica como por exámenes se sospechó íleo médico, por lo que se inició tratamiento para la corrección de alteraciones hidroelectrolíticas y ácido base. La paciente evolucio-

na con un alto débito por sonda nasogástrica de más de 100cc/hora, por lo que se indicó cirugía sospechando una peritonitis de foco probablemente apendicular. Se realiza una laparotomía paramediana derecha infraumbilical. Se encuentra apéndice sano, y en la exploración del resto del intestino se encuentra a 80 centímetros de la válvula ileocecal un área de íleon de 10 centímetros aumentado de volumen e indurado, por lo que se realiza resección intestinal y anastomosis término-terminal, encontrando en el lumen un tricobezoar. La paciente evoluciona favorablemente, iniciando alimentación al cuarto día luego del procedimiento, presentando distensión abdominal y vómitos con signos clínicos y radiográficos de obstrucción intestinal, por lo que 24 horas después es reintervenida encontrándose múltiples adherencias que se liberaron. Evoluciona satisfactoriamente, dándose de alta el día 14 desde su hospitalización. No ha concurrido a controles posteriores en este centro.

**Caso 2:** Adolescente de 14 años, que consultó en servicio de urgencia de nuestro hospital por cuadro caracterizado por dolor abdominal cólico, recurrente, en epigastrio, asociado a una masa dura, móvil y sensible en hipocondrio izquierdo. Fue hospitalizada para estudio por masa abdominal. Se efectuó una ecografía que mostró una masa hipoecoica con relación al lóbulo izquierdo del hígado. Se realizó un tránsito intestinal que mostró la presencia de un bezoar gástrico, por lo que se solicitó una endoscopia alta que finalmente permitió el diagnóstico de un tricobezoar gástrico gigante. Se intentó la extracción endoscópica, que resultó fallida. En la laparotomía se extrae, por gastrotomía, un gran bezoar de 25 por 8 centímetros. Durante la cirugía se presentó un sangrado de la mucosa gástrica que requirió transfusión de glóbulos rojos en el posoperatorio, evolucionando satisfactoriamente. Al revisar la historia clínica se encuentra el antecedente de dos consultas en dermatología, la primera, a la edad de 5 años, por caída del pelo diagnosticándose alopecia areata, la segunda, a la edad de 9 años diagnosticándose tricotilomanía. Al alta la paciente se controla durante un año, siendo evaluada por psiquiatra quien establece un leve trastorno de la personalidad.

**Caso 3:** Paciente de 10 años, sexo femenino, sin antecedentes mórbidos de importancia, hospitalizada por un cuadro caracterizado por dolor abdominal

epigástrico intenso de tipo cólico de 10 días de evolución. Asociándose a vómitos, sin diarrea ni fiebre. En el examen físico de ingreso presentaba dolor epigástrico intenso, sin masas, visceromegalia, ni signos de irritación peritoneal. La radiografía de abdomen simple mostraba gran cantidad de contenido fecal, sin niveles hidroaéreos. Hemograma con recuento leucocitario de 16.000, amilasemia, pruebas hepáticas y electrolitos plasmáticos normales. La ecografía abdominal fue informada como normal. Se catalogó como síndrome ulceroso siendo manejada como tal, con lo que cede su sintomatología, siendo dada de alta al segundo día de hospitalizada con control en policlínico de Gastroenterología, al cual no asistió.

Siete meses después, es hospitalizada nuevamente por cuadro de dolor cólico epigástrico intenso de una semana de evolución, sin fiebre, vómitos ni diarrea. Al examen de ingreso mostraba intenso dolor epigástrico, sin masas, visceromegalia, ni signos de irritación peritoneal. Se planteó una probable hernia de la línea blanca. Dentro de los exámenes de laboratorio destacan hematocrito de 25%, sin leucocitosis ni desviación a izquierda, hipoproteinemia de 4 mg/dl e hipoalbuminemia de 2,8. Se realizó radiografía abdominal simple que resultó sin hallazgos patológicos y ecografía que mostró líquido libre en epigastrio y un asa intestinal fija y dilatada que impedía ver el páncreas. La paciente evolucionó en malas condiciones generales, por lo que se decide exploración quirúrgica, al día siguiente de su ingreso. En laparotomía exploradora se encuentra una masa dura intragástrica. Se realiza gastrotomía en cara anterior, extrayendo un tricobezoar de 14 x 18 x 6 centímetros el que se prolongaba hacia duodeno. Al explorar el resto de intestino se encontró masa dura yeyunal de 10 centímetros de diámetro que se extrae por yeyunotomía. Presenta en el posoperatorio inmediato eliminación de sangre fresca por sonda nasogástrica que se maneja con lavados de suero frío, transfusión de glóbulos rojos (10cc/kg) en unidad de cuidados intensivos. Persiste con sangrado activo por sonda nasogástrica con tendencia al shock por lo que 5 horas después debe ser reintervenida con diagnósticos de shock hipovolémico secundario a hemorragia digestiva alta posquirúrgica. Se accede por laparotomía anterior, fluyendo sangre fresca al abrir el peritoneo. Se encuentra un desgarramiento de pared total en la cara posterior de la

unión duodeno pilórica de 2 centímetros de longitud, con sangrado arterial activo, el que se repara con puntos de seda 3/0 en dos planos. Se encontró además un desgarro yeyunal de aproximadamente 5 centímetros ubicado a 3 centímetros del ángulo de Treitz, el que se repara en dos planos con seda 3/0. En el postoperatorio evoluciona satisfactoriamente. Se controla hasta el mes luego del alta, encontrándose en buenas condiciones generales, sin asistir a sus controles posteriores.

## Discusión

Los tricobezoares se producen principalmente en niños o adultos jóvenes, siendo en un 90% de los casos pacientes de sexo femenino. La máxima frecuencia se encuentra entre los 10 y 19 años, asociándose generalmente a alteraciones psicológicas, pero sólo en el 9% éstas son manifiestas<sup>5-7</sup>. Es una patología de rara ocurrencia, y una vez hecho el diagnóstico el tratamiento de elección es la extracción, pues se pueden complicar con obstrucción intestinal, perforación o hemorragia. La mortalidad de estas complicaciones según algunos autores alcanza el 47%<sup>8,9</sup>.

En todos los pacientes se comprueban antecedentes de tricofagia<sup>10</sup>. El pelo puede ser del mismo paciente, hermanos, mascotas o muñecas. El pelo ingerido llega al estómago y permanece adherido a los pliegues gástricos por fenómenos de tensión superficial, constituyendo el núcleo del tricobezoar, que permanece en la cámara gástrica, resistente al jugo gástrico; puede avanzar en el tubo digestivo, hasta ser evacuado o provocar obstrucción intestinal<sup>7-9</sup>. En el estómago se mezcla con residuos de fibras vegetales y con mucosidad gástrica. En el síndrome de Rapunzel, toma la forma del estómago y su extremo distal migra a través del duodeno hasta el intestino delgado, incluso colon derecho<sup>11,12</sup>. En ocasiones el aumento de la presión intraluminal que ejerce el tricobezoar provoca necrosis y perforación de la pared intestinal. Otras complicaciones descritas en este síndrome son hemorragia, pancreatitis, intususcepción, ictericia obstructiva y apendicitis<sup>6,8</sup>.

El tricobezoar es invariablemente negro debido a la desnaturalización de las proteínas del pelo por acción del ácido clorhídrico, brillante por el moco retenido y de mal olor por los restos alimentarios en descomposición que lo componen<sup>8</sup>.

El cuadro clínico se caracteriza por dolor abdominal en el cuadrante superior izquierdo en el 40% de los casos, así como anorexia, baja de peso y vómitos. Dentro de los signos que se pueden encontrar destacan masa palpable, palidez de piel y mucosas y esteatorrea. Puede haber ictericia por compromiso de la vía biliar<sup>7,8</sup>. En los exámenes de laboratorio podemos encontrar anemia ferropénica, hipoproteinemia y alteraciones hidroelectrolíticas<sup>3,7</sup>.

El estudio radiográfico baritado puede mostrar un estómago atónico, píloroespasmó marcado y presencia de medio de contraste residual<sup>3</sup>. La tomografía axial computada permite visualizar la masa intragástrica, sus dimensiones y extensión<sup>3</sup>. La endoscopia da el diagnóstico definitivo de la presencia y tipo de bezoar, pudiendo incluso ser terapéutica<sup>4</sup>.

El tratamiento de elección de los bezoares es quirúrgico, mediante gastrotomía y en algunos casos enterotomía<sup>6-9</sup>. En los últimos 20 años se han intentado métodos como la extracción endoscópica<sup>5</sup>, fragmentación mediante láser, litotripsia extracorpórea o la disolución mediante enzimas. Estos procedimientos son elegidos para algunos casos específicos de bezoares pequeños.

Es importante comentar que en nuestros tres casos, no existía el antecedente de tricofagia, ni patología psiquiátrica evidente, por lo que no se sospechó como diagnóstico la presencia de un tricobezoar. Ambos casos fueron intervenidos con la sospecha de patología de urgencia (obstrucción intestinal y peritonitis), por lo que no se realizaron estudios imagenológicos complementarios (tránsito intestinal, TAC), que podrían haber orientado al diagnóstico. Dos casos evolucionaron tórpidamente y debieron ser reintervenidos, uno a las pocas horas por hemorragia aguda masiva y en el otro caso, al quinto día por obstrucción intestinal secundaria a adherencias. Pese a que se recomienda el seguimiento clínico y psiquiátrico, en estos casos no ha sido posible por ausencia de los pacientes a los controles.

## Bibliografía

1. Ramadan N, Panya N, Bhaduri B: A Rapunzel whit a difference. Arch Dis Child 88: 265-266, 2003.
2. Cataliotti F, LiVoti G: Esophageal achalasia and hypertrophic pyloric stenosis associated with a phytobezoar in an adolescent. J Pediatr Surg 37(9): 1363-1364, 2002.
3. Lanoue J, Arkovitz M: Trichobezoar in a four year old girl. N Engl J Med 149: 1242-1246, 2003.
4. Mike K, Beierle E: Gastrointestinal foreign bodies. Pediatr Annals 30: 736-742, 2001.
5. Nirasawa Y, Mori T, Ito Y, et al: Tanaka H, Atomi Y. Laparoscopic removal of a large gastric trichobezoar. J Pediatr Surg 33 (4): 663-665, 1998.
6. Frati Y, Freud E, Serour F, et al: Phytobezoar-induced ileal and colonic obstruction in childhood. J Pediatr Gastroenter Nutr 25: 214-216, 1997.
7. De Backer A, Van Nooten V, Vandenplas Y: Huge gastric tricobezoar in a 10 year-old girl: case report with emphasis on endoscopy in diagnosis and therapy. J Pediatr Gastroenter Nutr 28: 513-515, 1999.
8. Alvarado R, Uribe E, Gallego J: Tricobezoar. Presentación de dos casos. Acta Ped Méx 22 (4): 264-267, 2001.
9. Sánchez W, Rodríguez D, Luna-Pérez P: Síndrome de Rapunzel (tricobezoar). Rev Gastroenter Méx 62 (4): 284-286, 1997.
10. Beauregard G, Martínez F, Castañeda J, et al: Tricobezoar. Salud en Tabasco 7 (1): 372-374, 2001.
11. Rodríguez F, Cadaval A, Hernández A. Bezoar gástrico de bastoncillos de algodón. Anales Esp Pediatr 51(4): 402-404, 1999.
12. Walter C, Rivera J, Curioso W: Síndrome de Rapunzel: reporte de un caso y revisión de la literatura. Rev Gastroenter Perú 22 (2): 34-37, 2002.

---

Trabajo presentado en el Vº Congreso CIPESUR. Noviembre de 2003, Florianópolis, Brasil.

*Dr. J Lagos*  
*Hospital de Niños Exequiel González Cortés*  
*Santiago de Chile.*