

EXTRACȚIA ENDOSCOPICĂ A TRICHOBEZOARULUI GIGANTIC

Roman Bodrug, șef-secție Endoscopie, IMSP SCR,

**Peltec Angela, conferențiar universitar, dr. în șt. med., Disciplina Gastroenterologie,
Departamentul Medicină Internă, USMF „Nicolae Testemițanu”,**

Inga Bodrug, medic secția Endoscopie, IMSP SCR,

Renata Zgircu, medic secția Anesteziologie, IMSP SCR

E - mail: apeltec@yahoo.com, Tel 079435493, 22 40 35 29

Rezumat

Introducere: Bezoarul reprezintă o colecție de material parțial digerabil sau nedigerabil care nu poate ieși din stomac. Deși, incidența reală a apariției bezoarelor nu este cunoscută, incidența raportată este de aproximativ 0,4%. Aglomerările de păr sunt numite trihobezoar și apar cel mai frecvent la pacienții cu tulburări psihice (tricotilomanie), care ingeră propriul păr. Dizolvarea cu enzimele proteolitice, fragmentarea endoscopică sau extracția prin aspirație endoscopică și extracția chirurgicală au fost propuse ca opțiuni de tratament pentru bezoar. **Material și metode:** O femeie de 19 ani, cu antecedente de sindrom dispeptic (în ultimele 6 luni) a fost internată la spital cu greață și vărsături. Nu folosește droguri, alcool și este nefumătoare. Examinarea fizică și de laborator a fost fără modificări patologice. La examenul endoscopic al tractului digestiv superior în stomac s-a detectat o masă cu suprafață neregulată, de culoare neagră-cenușie, la biopsie endoscopică s-a stabilit că este compusă din păr. **Rezultate:** diverse metode endoscopice pentru extragerea bezoarului au fost raportate, inclusiv litotripsie cu coș endoscopic; îndepărtarea prin aspirare, folosind endoscopul cu canal mare; extracție cu ansa de polipectomie și forcepsul pentru biopsie. Extracția de trihobezoar a fost realizată endoscopic cu sprijinul anesteziei intravenoase cu intubarea nazo-traheală. Din stomac a fost extras un trihobezoar gigantic cu o lungime de 45 cm și lățime de 8 cm. **Concluzie:** îndepărtarea endoscopică cu succes al trihobezoarului gigantic a rezolvat acest caz fără

intervenție chirurgicală. Îndepărtarea endoscopică a bezoarului oferă o alternativă atractivă în comparația cu intervenția chirurgicală clasică sau alte forme de tratament medical.

Cuvinte-cheie: trihobezoar, sindrom Rapunzel, extragerea endoscopică

Summary. Endoscopically extraction of gigantic trichobezoar

Background: A bezoar is a tightly packed collection of partially digested or undigested material that is unable to exit the stomach. Although the incidence of bezoars is unknown, the reported incidence is about 0,4%. Agglomerations of hair are called trichobezoars and most commonly occur in patients with psychiatric disturbances (trichotillomania) who chew and swallow their own hair. Dissolution therapy with proteolytic or cellulase enzymes, endoscopic fragmentation or aspiration and surgery have been proposed as the treatment options for bezoars, and these treatments have a wide range of efficacy. **Material and methods:** A 19-year-old Caucasian female with a past medical history of dyspeptic syndrome (past 6 months) was admitted to the hospital with nausea and vomiting. No smoking, drugs or alcohol. The physical and laboratory examination have been without pathological modification. On endoscopy was detected a mass lesion in the stomach with irregular surface and gray – black color, an endoscopic biopsy that was yields hair. **Results:** Various endoscopic methods and instruments for breaking up bezoars have been reported, including lithotripsy with basket, endoscopic suction removal with large-channel endoscopy, polypectomy snare and biopsy forceps. Extraction of trichobezoars was performed endoscopically with intravenous anesthetic support. That was a gigantic trichobezoar with 45 cm length and 8 cm width. **Conclusion:** Successful manual removal via endoscopy of gigantic trichobezoar resolved this case without surgical intervention. Endoscopic removal of bezoars offers an attractive alternative to surgery or other forms of medical therapy.

Key words: trichobezoar, rapunzel syndrome, endoscopic removal

Резюме. Эндоскопическое удаление гигантского трихобезуара

Введение: bezoar является инородным телом, состоящим из частично перевариваемых или неперевариваемых материалов, который не в состоянии покинуть желудок. Хотя заболеваемость, вызванная bezoарам точно неизвестна, считается что она составляет около 0,4%. Скопление волос называют трихобезуаром. Они наиболее часто встречаются у пациентов с психическими расстройствами (трихотилломания), которые жуют и глотают свои собственные волосы. Использование протеолитических ферментов, эндоскопической фрагментации или аспирации и методы классической хирургии были предложены в качестве вариантов лечения bezoаров. **Материал и методы:** 19-летняя женщина с наличием диспепсии в анамнезе (последние 6 месяцев) была госпитализирована в стационар с тошнотой и рвотой. Не курит и не употребляет наркотики и алкоголь. Физикальное и лабораторное обследование были без патологических изменений. На эндоскопии в желудке было обнаружено инородное тело с неровной поверхностью и серо - черного цвета, при эндоскопической биопсии были выявлены волосы. **Результаты:** Различные эндоскопические методы для удаления bezoаров были зарегистрированы, в том числе литотрипсия с помощью эндоскопических захватывающих щипцов; эндоскопическая аспирация с помощью эндоскопа с большим каналом; экстракция с использованием петли для полипектомии или биопсийных щипцов. Удаление трихобезуара была выполнено эндоскопически с использованием внутривенной анестезии и назо-трахеальной интубации. Из желудка был удалён гигантский трихобезуар длиной 45 см и шириной 8 см. **Заключение:** Успешное удаление с помощью эндоскопии гигантского трихобезуара позволило обойтись без хирургического вмешательства. Эндоскопическое удаление bezoара предлагает привлекательную альтернативу хирургии или другим формам терапии.

Ключевые слова: трихобезуар, синдром Рапунцель, эндоскопическое удаление

Introducere

Bezoarii sunt conglomerate de material nedigerabil, cum ar fi păr care sunt de obicei localizate în stomac. Bezoarii sunt cunoscute încă din secolul al XII-lea, acestea au fost descrise inițial în India. Datorită rarității lor și patogenizei incert, bezoarilor s-au dat proprietăți magice. Chiar și numele, Bezoar, vine de la cuvântul arab „Bedzehr” - persană „Padzahr” - sau ebraic „Beluzaar” - toate cu sens împotriva otrăvei sau antidotul. Pe baza compoziției lor, bezoarii au fost clasificați în patru tipuri: fitobezoar (din legume), trichobezoar (din păr), lactobezoar (din lactate), precum și diverse (medicamente, hârtie absorbantă, gudron, nisip)^{1,2}. Cele mai frecvente sunt fitobezoare, care constau dintr-un material nedigerabil din plante

(celuloză, lignină), a doua forma mai comună reprezintă trihobezoarii, care sunt, de obicei, cauzate de trichofagie (ingestia de păr), combinată cu o boală psihică (tricotilomanie). Tricotilomanie și, anume, dorința irezistibilă de a extrage părul propriu, a fost descrisă pentru prima dată în 1889 de către Hallopeau, în timp ce primul caz de un trichobezoar a fost raportat cu un secol mai devreme de Baudamant în 1792^{3,4}. Această stare patologică afectează fetele tinere, cu sau fără tulburări psihiatrice cunoscute.

Sindromul Rapunzel reprezintă o forma rară de trihobezoar gastric la care „coada” se extinde până la nivelul duodenului sau intestinului subțire proximal. Acest sindrom a fost descris pentru prima dată de Vaughn și coautorii în 1968. Este numit după o poveste

te fermecătoare scrisă în 1812 de către frații Grimm despre o fată tânără, Rapunzel, cu plețele lungi, care a coborât părul său până la sol de la înălțimea turnului, în care a fost închisă, pentru a permite prințului tânăr să urce până la fereastra ei și s-o salveze. Sindromul Rapunzel poate provoca obstrucția intestinului subțire, icter sau chiar pancreatita acută. Acest sindrom rămâne rar, fiind recent confirmat într-un comentariu în literatura de specialitate efectuat în 2007 că în perioada între 1968 și 2006 au fost identificate 27 de cazuri de sindrom Rapunzel descrise⁵.

Prezentare de caz

O femeie de 19 ani, cu antecedente de sindrom dispeptic (în ultimele 6 luni) a fost internată în spital cu greață și vărsături. Nu folosește droguri, alcool și este nefumătoare. Pacienta nu avea istoric de probleme psihologice legate de relații în familie. Pacienta a prezentat paloare tegumentelor, aceasta fiind singura problemă patologică găsită la examenul fizical. Examinările de laborator au fost fără modificări patologice. La examenul endoscopic al tractului digestiv superior în stomac s-a detectat o masă, constituită din fire de păr negru și reziduurile alimentare, întinzându-se spre antrum, repetând forma stomacului, mergând prin duoden, până la porțiunile proximale a intestinului subțire, cu suprafață neregulată, de culoare negru-suriu. Trihobezuarul descris era compatibil cu sindromul Rapunzel^{5,14-19}.

Extracția de trichobezoars a fost realizată endo-

scopic cu sprijinul anesteziei intravenoase cu intubare nazo-traheală. Extracția endoscopică a fost inițiată prin fixarea „cozii” bezoarului cu ansa de polipectomie cu extragerea acesteia prin pilor, esofag și cavitatea bucală. La nivel faringelor trichobezoarul a fost tras cu forcepsul chirurgical, inspectat de laringoscoape. La extracție s-a dovedit a fi un trihobezoar cu o coadă conică ce se extindea în intestinul subțire, având forma ce perfect repeta curburile gastrice, a pilorului și duodenului de dimensiuni - 45 cm – lungime și 8 cm – lățimea maximală (Figura 1).

Pacienta a fost urmărită clinico-biologic și s-a externat din spital la 24 de ore după intervenție fără complicații. Interogarea detaliată a părinților a arătat faptul că tânăra s-a jucat cronic cu părul ei și de multe ori mesteca părul în cavitatea bucală. Pacienta a rămas în vizorul echipei chirurgicale, gastroenterologice și psihiatrice în vederea urmăririi ambulatorii în dinamică.

Discuții

Sindromul Rapunzel este o formă rară de trichobezoar. Diverse criterii au fost folosite de către diferiți clinicieni pentru raportarea cazurilor cu sindromul Rapunzel. Unii l-au definit ca un trichobezoar gastric cu o coadă ce se extinde până la joncțiunea ileocecală⁶; alții au spus că este pur și simplu un trichobezoar cu o coadă lungă, care poate cuprinde și jejunul, ileonul sau joncțiunea ileocecală, ai treilea au considerat ca un trichobezoar de orice dimensiune, care se

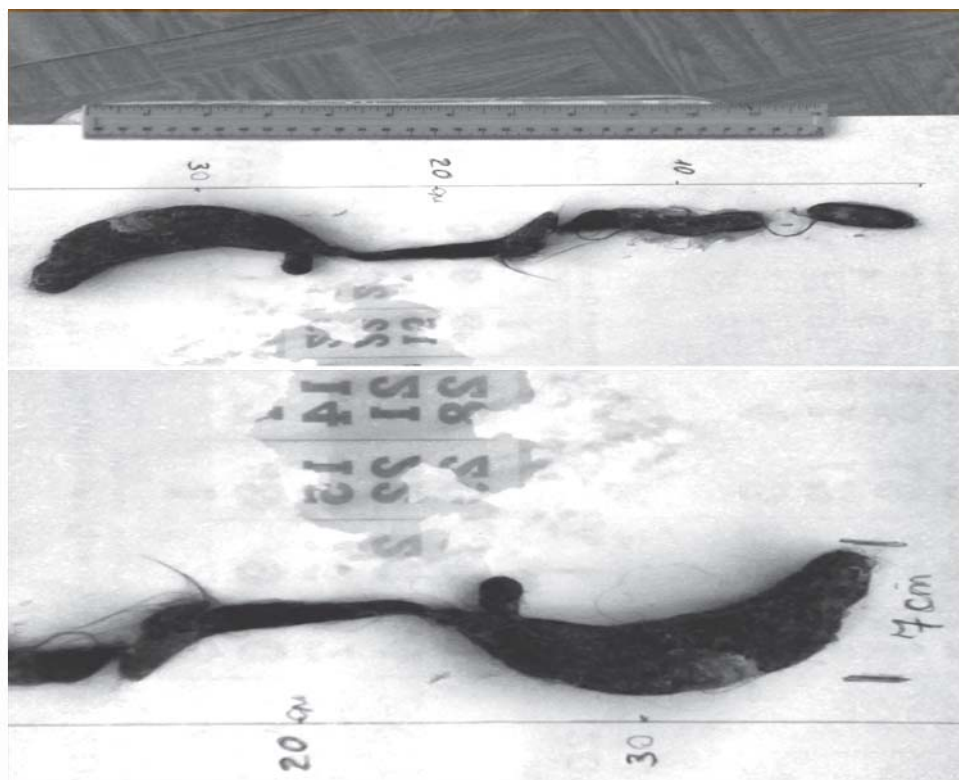


Figura 1. Mari, Trichobezoars verzui-negru care ocupă cea mai mare parte a stomacului (specimen postoperatorie)

prezintă sub forma unei obstrucții intestinale³. Naik S et al.⁵ a propus să se califice toate cazurile ca un sindrom Rapunzel atunci când sunt prezente următoarele caracteristici identice: (1) trichobezoarul cu coadă; (2) coada se prelungește, cel puțin, până la nivelul jejunului și, (3) prezența simptomelor sugestive pentru obstrucție.

De Bakey și Oschner a presupus că formarea de trihobezoar apare atunci când firele de păr sunt păstrate în pliurile mucoasei gastrice, deoarece suprafața lor alunecoasă împiedică propulsia de către undele peristaltice⁷. Când se adună mai multe fire de păr, undele peristaltice participă la formarea bolului din păr, care nu mai poate părăsi stomacul, provocând atonie gastrică, datorită dimensiunilor sale mari. Această cantitate mare de păr devine încâlcit împreună și ia forma stomacului, de obicei, ca o singură masă^{8,9,10}. Mucusul care acoperă bezoarul îi oferă o suprafață lucioasă strălucitoare. Descompunerea și fermentarea grăsimilor îi conferă un miros putred. Acidul clorhidric al stomacului denatura proteina părului oferindu-i culoarea neagră, indiferent de culoarea originală^{11,12}. Deși, această teorie ar putea explica de ce câteva fire de păr pot fi acumulate în stomac, aceasta nu explică de ce trihobezoarii mai mari nu pot părăsi stomacul.

Trihobezoarii sunt de obicei găsiți la fete mai tinere de 20 de ani, mai frecvent la copii. Nu există simptome patognomonice sau semne caracteristice pentru bezoari. Acuzele comune includ dureri abdominale, greață și vărsături, balonare, sațietate precoce, scădere ponderală, diaree sau constipație. În concordanță cu aceste constatări, cazul nostru a fost cazul unei tinere de 19 ani, ce s-a prezentat la internare cu o durere abdominală, greață și vărsături. Evoluția îndelungată ar putea provoca complicații, care includ apariția anemiei, hematemezei, ulcerului gastric, obstrucției intestinale, perforației, peritonitei, pancreatitei, icterului obstructiv, sindromului de malabsorbție, invaginațiilor și apendicitei¹³. Standardul diagnostic de aur este endoscopia digestivă superioară. Pe lângă asigurarea vizualizării directe, această procedură permite prelevarea de probe și de intervenție cu potențial terapeutic.

Gestionarea și tratamentul unui bezoar trebuie să cuprindă îndepărtarea masei și prevenirea recurenței, prin abordarea cauzei fizice sau emoțional, care stau la baza apariției acestei patologii. În funcție de consistența sa, mărimea și localizarea, îndepărtarea bezoarului se poate efectua prin endoscopie sau intervenție chirurgicală. În mod tradițional, un trichobezoar gastric a fost eliminat prin gastrotomie, printr-o laparotomie mediană superioară. De la apariția chirurgiei miniinvasive, chirurgii folosesc acum tehnicile laparoscopice pentru extragerea bezoarilor mici

și de dimensiuni moderate^{5,14,15}. Diverse alte metode, cum ar fi litotriția extracorporală cu unda de șoc, administrarea intragastrică de enzime (lipaza pancreatică, celulază) și, medicamente (metoclopramid, acetilcisteină) demonstrează eficiență diferită¹⁴.

Terapia endoscopică poate fi eficientă pentru bezoarii compuși din materii vegetale (fitobezoarii) și caș din lapte (lactobezoarii), deoarece acestea sunt de dimensiuni reduse, dar este mai puțin probabil să fie eficiente pentru trichobezoarii, în special, cei care sunt mari (> 20 cm). S-au raportat diverse metode și instrumente endoscopice pentru dezmembrarea bezoarelor, inclusiv litotripsie cu coș endoscopic, îndepărtarea prin aspirare cu endoscop cu canal mare, extragere cu ansa de polipectomie și forcepsul de biopsie. Ca și în cazul nostru diagnosticul a fost suspectat clinic, și a fost confirmat endoscopic. Extracția trihobezoarului a fost realizată endoscopic cu sprijinul anestezic intravenos.

Deoarece stresul emoțional de bază este de multe ori un factor declanșator pentru trihofagie sau tricotilomanie observată la pacienții afectați, evaluare psihiatrică sau psihologică este esențială. Pacienta noastră a fost direcționată la clinica psihiatrică pentru evaluarea psihologică și aplicarea tratamentului la necesitate. Pentru prevenirea recurențelor a fost recomandată urmărirea psihiatrică.

Concluzie: îndepărtarea cu succes prin endoscopie a trihobezoarului gigantic a permis rezolvarea acestui caz, fără intervenție chirurgicală. Îndepărtarea endoscopică a bezoarului oferă o alternativă atractivă privind intervenția chirurgicală sau alte forme de terapie. Acesta este primul caz raportat de extragerea endoscopică a trihobezoarului gastric gigant.

Bibliografie

1. Lee J. Bezoars and foreign bodies of the stomach. *Gastrointest Endosc* 1996; 6: 605-619.
2. Feldman, M., Friedman, L.S., Brandt, L.J. Foreign bodies, bezoars, and caustic ingestions. In: *Sleisenger and Fordtran's Gastrointestinal and Liver Disease*. 9th ed. Philadelphia, PA: Elsevier; 2010.
3. Faria A.P., Silva I.Z., Santos A., Avilla S.G.A., Silveria A.E. The Rapunzel syndrome – a case report: trichobezoar as a cause of intestinal perforation (in Portuguese). *J Pediatría (Rio J)* 2000; 76: 83–86.
4. Santos T., Nuno M., Joao A. et al. Trichophagia and trichobezoar: Case report. *Clin Pract Epidemiol Ment Health*.2012;8:43–45.
5. Naik S., Gupta V., Naik S. et al., „Rapunzel syndrome reviewed and redefined”. *Digestive Surgery* 2007; vol. 24, no. 3: 157–161.
6. Kaspar A., Deeg K.H., Schmidt K., Meister R. Das Rapunzel-Syndrom, eine ungewöhnliche Form intestinaler Trichobezoare. *Klin Padiatr* 1999; 211: 420–422.
7. DeBakey M., Oschner A. Bezoars and concretions, comprehensive review of literature with analysis of

303 collected cases and presentation of 8 additional cases. *Surgery* 1938; 4:934-963, 1939; 5:132-160.

8. Pace A.P., Fearn C. Trichobezoar in a 13 year old male: a case report and review of literature, *Malta Med J* 2003; 15: 39-40.

9. Gorter R.R., Kneepkens C.M., Mattens, E.C. et al. Management of trichobezoar: Case report and literature review. *Pediatr Surg Int.* 2010;26:457-463.

10. Salem M., Fouda R., Fouda U., Maadawy M.E., Ammar H. Rapunzel and pregnancy. *South Med J.* 2009;102(1):106-7.

11. O'Sullivan M.J., McGreal G., Walsh J.G. Trichobezoar. *J R Soc Med* 2001; 94: 68-70.

12. Singla S.L., Rattan K.N., Kaushik N., Pandit S.K. Rapunzel syndrome: A case report. *Am J Gastroenterol.* 1999;94(7):1970-1971.

13. Wadlington W.B., Rose M., Holcomb G.W. Complications of trichobezoars: a 30-year experience. *South Med J* X5:1020-1022, 1992.

14. Groenewald C.B., Smoot R.L., Farley D.R. A football-sized gastric mass in a healthy teen. *Contemp Surg* 2006;62:531-534.

15. Eryilmaz R., Sahin M., Alimoğlu O., Yildiz MK. [A case of Rapunzel syndrome]. *Ulus Travma Acil Cerrahi Derg* 2004;10:260-263.

16. Zent R.M., Cothren C.C., Moore E.E. et al. Gastric Trichobezoar and Rapunzel Syndrome. *The American College of Surgeons* 2004; 990.

17. Jensen A.R., Trankiem C.T., Steve Lebovitch S. et al. Gastric outlet obstruction secondary to a large trichobezoar. *JPS* 2005; 40: 8.

18. Rabie M.E., Arishi A.R., Khan A. et al. Rapunzel syndrome: The unsuspected culprit. *World J Gastroenterol.* 2008;14(7):1141-1143.

19. Prasad A.J., Rizvon K.M., Angus G. et al. A giant trichobezoar presenting as an abdominal mass. *Gastrointest Endosc.* 2011;73(5):1052-1054.