

Joanna Godlewska, Justyna Orpiszewska, Wojciech Górecki

Nawrotowy trichobezoar u pacjentki z zespołem Roszpunkki

Recurrent trichobezoar in a patient with Rapunzel syndrome

Klinika Chirurgii Dziecięcej, Uniwersytet Jagielloński – Collegium Medicum, Uniwersytecki Szpital Dziecięcy w Krakowie, Kraków, Polska
Adres do korespondencji: Joanna Godlewska, Klinika Chirurgii Dziecięcej, Uniwersytet Jagielloński – Collegium Medicum, ul. Wielicka 265, 30-663 Kraków,
tel.: +48 12 333 91 53, e-mail: joanna.godlewska@gmail.com

Streszczenie Zespół Roszpunkki jest schorzeniem, w którym na skutek powtarzalnego spożywania włosów dochodzi do powstawania trichobezoarów wypełniającego żołądek i bliższy odcinek jelita cienkiego. Sześciolatka dziewczynka zgłosiła się na szpitalny oddział ratunkowy z powodu bólu brzucha, wymiotów i badalnego oporu w nadbrzuszu. Ustalono rozpoznanie ciała obcego w żołądku i drogą laparotomii usunięto trichobezoar będący odlewem żołądka, dwunastnicy i bliższego odcinka jelita cienkiego. Pacjentkę wypisano w 5. dobie pooperacyjnej z zaleceniem kontroli ambulatoryjnej i opieki psychologicznej. Po 7 miesiącach dziewczynka zgłosiła się z nawrotem objawów. Wykonano laparotomię i usunięto nawrotowy trichobezoar. Włączono leczenie psychiatryczne oraz substytucję żelaza. Po 10 tygodniach od wypisu przeprowadzono kontrolną gastroscopię, w której nie stwierdzono obecności ciała obcego. Obecnie brak jest wytycznych odnośnie do postępowania pooperacyjnego po usunięciu trichobezoarów. Ze względu na możliwość nawrotowego przebiegu choroby należy rozważyć planową kontrolę endoskopową, która może pozwolić na wcześniejsze rozpoznanie nawrotu i zastosowanie mniej inwazyjnego leczenia.

Słowa kluczowe: trichobezoar, zespół Roszpunkki, ciało obce w przewodzie pokarmowym

Abstract Rapunzel syndrome is a condition where a trichobezoar is formed in the stomach and proximal intestine due to hair ingestion. A 6-year-old girl presented to emergency department with abdominal pain, vomiting and a palpable epigastric mass. Laparotomy was performed for gastric foreign body; a trichobezoar that filled the stomach, duodenum and proximal small intestine was removed. Postoperative course was uncomplicated; the patient was discharged for further out-patient follow-up and psychological care. After 7 months, the girl presented with a recurrence. A recurrent trichobezoar was removed via laparotomy. The girl was started on psychiatric treatment and iron substitution for anaemia. Ten weeks after discharge, follow-up gastroscopy was negative for gastric foreign body. There are no guidelines for follow-up after trichobezoar removal. Since the disease may be recurrent, follow-up endoscopy should be considered in order to enable an early diagnosis and less invasive treatment.

Keywords: trichobezoar, Rapunzel syndrome, gastrointestinal foreign body

WSTĘP

Bezoar jest to ciało obce w przewodzie pokarmowym, które powstaje wskutek odkładania się w jego świetle substancji nieulegających strawieniu. Zjawisko to występuje w przypadkach zaburzeń motoryki przewodu pokarmowego, przy nieprawidłowej anatomii żołądka po zabiegach chirurgicznych oraz w schorzeniach psychiatrycznych przebiegających z zaburzeniami łaknienia. W zespole Roszpunki wskutek powtarzanego spożywania włosów dochodzi do powstania trichobezoar u stanowiącego odlew żołądka i dwunastnicy, a niejednokrotnie też dalszego odcinka jelita cienkiego.

OPIS PRZYPADKU

W listopadzie 2017 roku dotychczas zdrowa 6-letnia dziewczynka zgłosiła się na szpitalny oddział ratunkowy (SOR) z powodu wymiotów i bólu brzucha. Dzień wcześniej opiekunowie zauważyli nieprawidłową masę w obrębie nadbrzusza dziecka. Na podstawie badania klinicznego i badań obrazowych (radiologicznego – RTG i ultrasonograficznego – USG jamy brzusznej) rozpoznano ciało obce w obrębie żołądka (ryc. 1). Wykonano laparotomię i usunięto trichobezoar wypełniający żołądek, dwunastnicę i pierwsze pętle jelita cienkiego, o łącznej długości 73 cm (ryc. 2, 3).

Przebieg okołoperacyjny był niepowikłany. Pacjentkę wypisano do domu w 5. dobie po zabiegu. Zalecono kontrolę w poradni chirurgicznej, działania mające na celu



Ryc. 1. Zdjęcie rentgenowskie jamy brzusznej w projekcji przednio-tylnej przy przyjęciu



Ryc. 2. Widok śródoperacyjny – pierwsza operacja



Ryc. 3. Preparat operacyjny – pierwsza operacja

uniemożliwienie dalszego spożywania włosów i skierowanie dziewczynkę do poradni psychologicznej.

Po 4 miesiącach pacjentka zgłosiła się ponownie na SOR z powodu bólu brzucha. W badaniu przedmiotowym, USG i RTG jamy brzusznej nie stwierdzono nieprawidłowości. Dziecko wypisano do domu.

Trzy miesiące później (7 miesięcy od pierwszego zabiegu) dziewczynka kolejny raz została przyjęta na SOR z bólem brzucha i wymiotami. W badaniu przedmiotowym stwierdzono twardy opór w nadbrzuszu, w zdjęciu RTG masę modelującą okrężnicę. Z rozpoznaniem nawrotowego bezoaru pacjentkę zakwalifikowano do laparotomii. Usunięto trichobezoar wypełniający żołądek, dwunastnicę i pierwszą pętlę jelita cienkiego (ryc. 4, 5).

Przebieg gojenia był niepowikłany. Poproszono o konsultację psychiatryczną, włączono leczenie inhibitorem wychwyty zwrotnego serotoniny. Rozpoczęto również leczenie anemii z niedoboru żelaza. Dziewczynka była konsultowana przez pracownika poradni socjalno-prawnej. Dziecko wypisano do domu po 5 dniach z zaleceniem kontroli w poradni chirurgicznej, poradni gastroenterologicznej i dalszego leczenia psychiatrycznego.

Po 2,5 miesiąca u pacjentki wykonano planową kontrolną gastroskopię, w której nie stwierdzono obecności ciał obcych w żołądku. Dziewczynka nie prezentuje niepokojących objawów klinicznych. Jest objęta ambulatoryjną opieką psychiatryczną i psychologiczną. Obecnie zakończyła farmakoterapię, natomiast w dalszym ciągu uczestniczy w terapii behawioralnej.



Ryc. 4. Widok śródoperacyjny – druga operacja



Ryc. 5. Preparat śródoperacyjny – druga operacja

OMÓWIENIE

Zespół Roszpunkki jest rzadkim schorzeniem, dotyczącym najczęściej młodych kobiet i dziewcząt z zaburzeniami psychiatrycznymi⁽¹⁾. W sytuacji braku skutecznego leczenia trichofagii możliwy jest nawrotowy przebieg choroby. W literaturze opublikowano jedynie kilka opisów przypadków nawrotowych trichobezoarów; dotyczą one głównie osób dorosłych⁽²⁻⁴⁾.

W przypadku ostrych objawów bezoar leczy się zwykle operacyjnie drogą laparotomii i gastrotomii. Istnieją doniesienia o laparoskopowym usunięciu zmiany⁽⁵⁾, jak również endoskopowym rozdrobieniu masy z jej następowym usunięciem bądź pozostawieniem do wydalenia drogą przewodu pokarmowego⁽⁶⁾. W przypadku braku ostrych objawów opisywane są skuteczne próby rozpuszczania bezoaru poprzez spożywanie gazowanych napojów, takich jak cola, piwo, woda gazowana⁽⁷⁾, czy przyjmowanie substancji enzymatycznych⁽⁸⁾ samodzielnie lub w połączeniu z leczeniem endoskopowym. Leczenie elektywne pozwala więc niejednokrotnie uniknąć procedur inwazyjnych.

Ze względu na rzadkie występowanie trichobezoarów, zwłaszcza w postaci nawrotowej, brak jest ogólnie przyjętych standardów monitorowania pacjentów po usunięciu zmiany. Podstawowe znaczenie ma właściwa opieka psychiatryczna i psychologiczna, mająca na celu kontrolę trichofagii. Rutynowa kontrola endoskopowa może natomiast umożliwić wczesne wykrycie nawrotu, a w konsekwencji wdrożenie leczenia zachowawczego przy małej objętości bezoaru i uniknięcie leczenia operacyjnego.

WNIOSKI

Przypadek opisanej pacjentki stanowi przykład nietypowego przebiegu zespołu Roszpunkki. Obecnie brak jest wytycznych odnośnie do kontroli pooperacyjnej u osób po usunięciu bezoaru. Należy pamiętać o ryzyku nawrotowego charakteru dolegliwości i rozważyć okresowe wykonywanie kontrolnych gastroscopii w celu wczesnego rozpoznania nawrotu i uniknięcia konieczności kolejnej laparotomii.

Konflikt interesów

Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść publikacji oraz rościć sobie prawo do tej publikacji.

Piśmiennictwo

1. Chana RS, Viral A, Kumar R: Gastrointestinal bezoars in children with special reference to recurrent trichobezoar. *J Indian Assoc Pediatr Surg* 2004; 9: 25–29.
2. Morales-Fuentes B, Camacho-Maya U, Coll-Clemente FL et al.: Trichotillomania, recurrent trichobezoar and Rapunzel syndrome: case report and literature review. *Cir Cir* 2010; 78: 265–266.
3. Kirpınar I, Kocacenk T, Koçer E et al.: Recurrent trichobezoar due to trichophagia: a case report. *Gen Hosp Psychiatry* 2013; 35: 439–441.
4. Kiernan MF, Kamat S, Olgabaiye F: Cows-feet soup: a rare cause of recurrent trichobezoar. *BMJ Case Rep* 2012; 2012: bcr0220125787.
5. Bustos R, Gheza F, Masrur M: Snapshot in surgery: how do you approach this 12-year-old girl? *Clin Case Rep* 2018; 6: 1389–1390.
6. Nunes G, Patita M, Barosa R et al.: Small bowel obstruction after endoscopic fragmentation of a gastric bezoar: an unexpected complication. *Turk J Gastroenterol* 2018; 29: 616–618.
7. Iwamuro M, Yamauchi K, Shiraha H et al.: All carbonated beverages effectively dissolve phytobezoars. *Clin Res Hepatol Gastroenterol* 2018; 42: e66–e67.
8. Cerezo Ruiz A, Domínguez-Jiménez JL, Uceda-Vaño A: Cellulase, Coca-Cola®, pancreatin and ursodeoxycholic acid in the dissolution of gastric bezoars: why not all together? *Rev Esp Enferm Dig* 2018; 110: 472–473.