

Evita Pšeničny<sup>1</sup>, Neža Sofija Pristov<sup>2</sup>, Domen Plut<sup>3</sup>

## Trihobezoar – predstavitev kliničnega primera

### *Trichobezoar – A Case Report*

#### IZVLEČEK

KLJUČNE BESEDE: trihobezoar, trihotilomanija, sindrom Rapunzel, otroci, bolečina v trebuhu

Trihobezoar je skupek las in neprebavljene hrane, ki se lahko pojavi v prebavni cevi pri otrocih s psihiatrično motnjo puljenja las (trihotilomanijo) in njihovega uživanja (trihofagijo). Običajno se nahaja v želodcu, v redkih primerih, predvsem pri uživanju daljših las, pa se lahko iz želodca nadaljuje skozi pilorus v dvanajstnik in tanko črevo, kar imenujemo sindrom Rapunzel. Otroci s trihobezoarjem so več let brez simptomov, ob povečanju velikosti bezoarja pa lahko nastanejo številni simptomi in znaki, kot so bolečina v trebuhu, slabost, bruhanje, občutek hitre sitosti, izguba telesne mase, pojavi se lahko tudi malabsorpcija, anemija, možen zaplet je tudi pankreatitis. Prva izbira zdravljenja je v večini primerov kirurška, ob manjših tvorbah in uspešnem drobljenju pa je možna tudi endoskopska odstranitev. Obvladovanje psihiatričnega vidika tega stanja je ključno za preprečevanje ponovitve trihobezoarja in ponovne potrebe po operativnem posegu. V kliničnem primeru opisujemo zanimiv primer devetletne deklice z vztrajajočimi bolečinami v trebuhu in palpatorno občutljivostjo v epigastričnem področju. Sum na diagnozo trihobezoarja je bil postavljen z UZ-preiskavo. Takrat so starši tudi navedli, da so pri deklenci nekaj časa opazili trihotilomanijo in trihofagijo. Diagnoza je bila potrjena z endoskopijo. Opravljen je bil kirurški poseg za njegovo popolno odstranitev.

#### ABSTRACT

KEY WORDS: trichobezoar, trichotillomania, Rapunzel syndrome, children, abdominal pain

Trichobezoar is a cluster of hair and undigested food that can occur in children suffering from the psychiatric disorder of hair pulling (trichotillomania) and their consumption (trichophagia). It is usually located in the stomach, but rarely, especially when eating longer hair, it can extend from the stomach through the pylorus into the duodenum and the small intestine. This is called Rapunzel syndrome. Children with trichobezoar are asymptomatic for years, but as the size of the bezoar increases, many symptoms may occur, such as abdominal pain, nausea, vomiting, a rapid satiety feeling, weight loss, malabsorption, anaemia and pancreatitis as a possible complication. In most cases, the treatment of choice is surgical removal, while endoscopic removal is possible for smaller formations after successful fragmentation. Managing the psychiatric aspect of this condition is crucial in preventing the

<sup>1</sup> Evita Pšeničny, dr. med., Klinični inštitut za radiologijo, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Zaloška cesta 7, 1000 Ljubljana; evita.psenicny@gmail.com

<sup>2</sup> Neža Sofija Pristov, dr. med., Interna klinika, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Zaloška cesta 7, 1000 Ljubljana

<sup>3</sup> Doc. dr. Domen Plut, dr. med., Klinični inštitut za radiologijo, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Zaloška cesta 7, 1000 Ljubljana; Katedra za radiologijo, Medicinska fakulteta Univerze v Ljubljani, Vrazov trg 2, 1000 Ljubljana

recurrence of trichobezoar and the need for another surgery. Here, we describe an interesting case of a nine-year-old girl with persistent abdominal pain and palpatory tenderness in the epigastric region. A trichobezoar was suspected by ultrasound. When asked, the parents reported observing trichotillomania and trichophagia for some time prior presentation. The diagnosis was confirmed with endoscopy and successfully surgically resolved.

## UVOD

Bezoarji so skupki neprebavljene snovi v prebavnem traktu. Delimo jih glede na njihovo glavno sestavino (tabela 1). Bezoarji se večinoma pojavljajo pri mladih, zlasti najstnikih, opisani pa so primeri tudi v drugih starostnih skupinah (1). Pogosto nastanejo pri ljudeh z moteno gibljivostjo in upočasnjenim praznjenjem želodca, po delni resekciji želodca, po vagotomiji ali okvari tega živca, pri bolnikih z diabetično nevropatijo, miotonično distrofijo ali pri zdravljenih z antiholinergičnimi zdravili. Na nastanek bezoarja lahko vpliva tudi slabše prežvečena in neprebavljena hrana (2). Pri otrocih so najpogostejši trihobezoarji, ki nastanejo v povezavi s psihiatričnim obolenjem, za katerega je značilno puljenje lastnih las (trichotilomanija) in njihovo zaužitje (trichofagija) (3, 4). Nastanek trihobezoarjev je pogosto povezan tudi z različnimi stopnjami duševne manjrazvitosti, depresijo, obsesivno-kompulzivno motnjo, anoreksijo nervozo in drugimi psihiatričnimi motnjami. Slednje so lahko posledica čustvenih motenj, slabe samopodobe, zlo-

rab, zanemarjanja ali družinskih neskladij (5, 6). Ocenjena prevalenca trihotilomanije je 1 na 2.000 otrok, 30 % teh razvije tudi trihofagijo. Pri le 1 % otrok s trihofagijo pa se pojavi trihobezoar (5–8). Trihobezoarji predstavljajo 55 % vseh bezoarjev, 90 % se jih pojavi pri najstnicah, ki imajo dolge lase (7). Zaužiti lasje se zaradi gladke in drsljive strukture izognejo peristaltiki in se kopičijo v želodcu (9). Trihobezoarji običajno ne povzročajo težav, dokler ne dosežejo znatne velikosti in povzročijo funkcijsko zoženje prebavnega trakta. Ob izraženi klinični sliki so glavni simptomi bolečina v trebuhu, slabost, bruhanje, občutek hitre sitosti in izguba telesne mase (1, 4). Dolgoročni potek bolezni lahko zaznamujejo malabsorpcija in izrazita mikrocitna anemija zaradi pomanjkanja železa ali krvavitve v prebavnem traktu (5). Redka oblika trihobezoarja, za katero je značilno, da se tvorba nadaljuje iz želodca skozi pilorus v dvanajstnik, tanko črevo in zelo redko doseže tudi debelo črevo, se imenuje sindrom Rapunzel (Rapunzel je Zlatolaska, dolgolasa deklica iz pravljice bratov Grimm) (3, 10). Sindrom so

**Tabela 1.** Vrste bezoarjev glede na sestavo (1, 2, 4).

| Vrsta bezoarja | Glavna sestavina                                                                                                        |
|----------------|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| trihobezoar    | lasje                                                                                                                   |
| fitobezoar     | rastlinska vlakna, semena, listje, korenine                                                                             |
| diospirobezoar | vlakna sadeža kaki – <i>Diospyros kaki</i>                                                                              |
| farmakobezoar  | zdravila                                                                                                                |
| laktobezoar    | neprebavljeno mleko in mukus (novorojenčki z majhno porodno težo, ki so hranjeni z visoko koncentrirano mlečno formulo) |
| ostali tipi    | neprebavljena hrana, kemikalije, pesek, beton, papir, tujki                                                             |

prvič opisali Vaughan in sodelavci leta 1968 (11). Zdravljenje trihobezoarja je njegova odstranitev. Zaradi čvrste zgradbe je drobljenje večinoma neuspešno. Odstranitev majhnih trihobezoarjev v želodcu je lahko minimalno invazivno, z endoskopskim posegom, kar pa se zgodi redko, saj so ob postavitvi diagnoze običajno že večji. Večje trihobezoarje je treba odstraniti kirurško, z laparoskopijo ali laparotomijo (6).

V članku predstavimo klinični primer deklice s trihobezoarjem, opišemo klinično sliko, možne diferencialne diagnoze, diagnostiko in zdravljenje. Zgodnje prepoznavanje in zdravljenje je zelo pomembno, saj so otroci s trihobezoarjem lahko več let brez težav, simptomi, ki se pojavijo ob naraščanju njegove velikosti, pa so nespecifični. Sprejemanje ali nezdravljen trihobezoar lahko privede do resnih zapletov, kot so zapora prebavnega trakta, obstruktivna zlatenica, akutni pankreatitis, razjede, krvavitve iz prebavnega trakta, predrtje, peritonitis in intususcepcija (4, 5). Pomembna je tudi psihiatrična obravnava in zdravljenje teh otrok.

## KLINIČNI PRIMER

Devetletna deklica, brez pridruženih obolenj, je imela nekaj tednov trajajoče bolečine v trebuhu, zlasti v spodnjem delu pod popkom, včasih tudi pod obema rebrnima lokoma in v epigastriju. Bolečine so bile prehodne narave, pojavljale so se predvsem zvečer, včasih tudi zjutraj, in so spontano izzvenele. Niso bile povezane s prehranjevanjem ali telesno aktivnostjo. Občasno ji je bilo tudi slabo, bruhalo ni. Ob kliničnem pregledu je bil trebuh mehak, palpatorno neboleč, nekoliko občutljiv v epigastriju, vendar brez tipnih rezistenc. Drugih odstopanj v kliničnem statusu ni bilo ugotovljenih. Deklica je bila napotena na UZ trebuha, kjer je bil postavljen sum na bezoar v želodcu, ostali trebušni organi pa so bili primerni. Po vprašanju so starši potrdili, da so pri deklici že dalj časa opazili trihotilomanijo, trihofagijo in izpadanje

las – postavljen je bil sum na trihobezoar, deklica pa napotena v bolnišnico. Ob sprejemu je bila odvzeta kri za osnovne laboratorijske preiskave, vse vrednosti so bile v mejah normalnega. Za potrditev diagnoze trihobezoarja je bila opravljena ezofagogastroduodenoskopija v splošni anesteziji. V lumnu želodca, zlasti v zgornjem delu, je bil videti skupek las izrazito trde konsistence, premera 6 cm in dolžine 10–15 cm. Zaradi sestave in trdnosti tvorbe endoskopska odstranitev ni bila možna, zato je bil opravljen kirurški poseg. Z gastrotomijo je bil iz želodca odstranjen rjavkast trihobezoar oblike lumna želodca. Deklica je po posegu hitro okrevala in bila odpuščena domov. Napotena je bila tudi na psihiatrično obravnavo pri pedopsihiatru.

## RAZPRAVA

Trihobezoar je najpogostejša oblika bezoarja pri otrocih. Je trdna kepa las in neprebavljene hrane, ki se značilno prilagodi obliki želodca in se sčasoma večja ter začne povzročati klinične težave (1). Na trihobezoar kot diferencialno diagnozo je treba pomisliti ob sprejemu otroka z nespecifičnimi simptomi prebavil, tipno zatrdlino ali občutljivostjo v epigastriju in mikrocitno anemijo s pomanjkanjem železa, zlasti ob prisotnosti trihotilomanije (5). Za postavitve diagnoze trihobezoarja so potrebni natančna anamneza, klinični pregled, odvzem krvi za laboratorijske preiskave, slikovna diagnostika in v večini primerov tudi endoskopska preiskava, ki je včasih lahko tudi terapevtska. V sklopu anamneze izvemo o pacientovih težavah in simptomih, morebitnih psihiatričnih obolenjih, treba pa je povprašati tudi o trihotilomaniji in trihofagiji (4–6). V opisanem kliničnem primeru devetletne deklice so bili prisotni dlje časa vztrajajoča bolečina v trebuhu, občutljivost epigastrija ob palpaciji in trihotilomanija, o kateri pa starši niso poročali, dokler ni bilo postavljeno ciljano vprašanje.

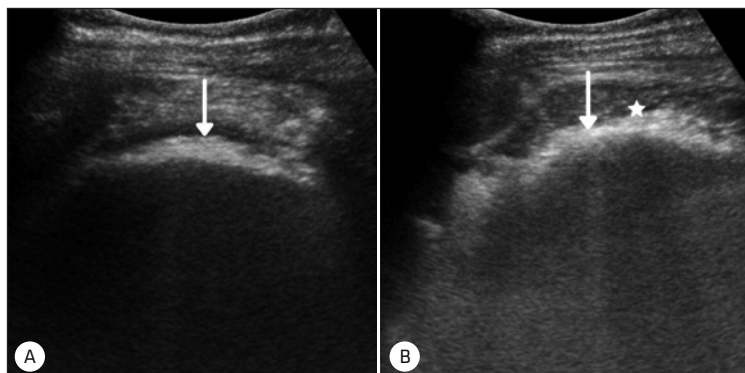
Otroci s trihobezoarjem so lahko več let brez simptomov. Simptomi nastopijo ob naraščanju njegove velikosti. Najpogostejše se pojavijo občutljivost in bolečina v trebuhu, slabost, bruhanje, občutek hitre sitosti, izguba telesne mase, izrazito slab zadah (halitoza – zaradi razgradnje maščob v laseh) in izguba las (alopecija) ob trihotilomaniji (4, 5). Veliki bezoarji lahko povzročijo resne zaplete. Nastane lahko zapora prebavnega trakta, razjeda želodca ali dvanajstnika, predrtje stene prebavnega trakta s peritonitisom, krvavitvijo in ishemičnimi ali nekrotičnimi spremembami črevesja. Možni so tudi drugi zapleti, in sicer nastanek fistul, steatoreja, akutni pankreatitis, obstruktivna zlatenica, intususcepcija, enteropatija z izgubo beljakovin in zaprtje (4, 12). Da se izognemo zapletom, je potrebna hitra in učinkovita diagnostika ter uspešno zdravljenje.

Ob kliničnem pregledu otrok s trihobezoarjem je možno zatipati premakljivo, dobro zamejeno tvorbo v epigastrični regiji. Diferencialna diagnoza zatrdline v epigastriju vključuje tumor levega jetrnega režnja, povečanje vranice (limfom, okužba), nevroblastom in redek tumor želodca (5). Sindrom trihotilomanije najpogostejše vodi v izgubo las brez jasnega področja plešavosti, zato je pri otrocih potreben natančen pregled skalpa. Izguba las se pri otrocih

lahko pojavi tudi zaradi glivične okužbe kože s *tinea capitis*, bakterijskih okužb, traktijske alopecije in alopecije areate. Možen vzrok plešavosti, ki pa je pri otrocih redek, je tudi telogeni efluvij, ki ga običajno sprožijo stresni dogodki (4).

Osnovne vrednosti laboratorijskih preiskav krvi so pogosto znotraj normalnega območja, v primeru večjega ali dlje časa prisotnega trihobezoarja pa je možen pojav mikrocitne anemije, ki nastane zaradi zmanjšane vsrkanja železa ali krvavitve iz razjede želodca ali dvanajstnika. V primeru širjenja trihobezoarja v dvanajstnik in obstrukcije papile Vateri lahko pride do zastajanja žolčne vsebine in povišanja vrednosti jetrnih encimov, bilirubina in vnetnih kazalcev (5). Ob vztrajajoči bolečini v trebuhu in sumu na trihobezoar je prva slikovna preiskava izbora UZ trebuha, pri katerem je v lumnu želodca lahko vidna ehogena tvorba (slika 1A). Po pitju tekočina tvorbo oblije tvorbo, kar potrdi, da je tvorba trde strukture in se nahaja v lumnu želodca (slika 1B).

Za potrditev diagnoze in določitev velikosti trihobezoarja se uporabljata RTG-preiskava zgornjih prebavil s pitjem barijevega kontrastnega sredstva in CT (4). Značilna najdba pri CT-preiskavi je dobro zamejena heterogena tvorba jajčaste oblike z vključki plina v lumnu želodca. V pri-



**Slika 1.** Ultrazvočni prikaz trihobezoarja v lumnu želodca pri devetletni deklici. V epigastriju želodca je vidna velika ehogena tvorba (puščica) (del A). Po pitju tekočina tvorbo oblije (zvezdica). Oblije tvorbo s tekočino potrdi njeno čvrsto in homogeno strukturo, prav tako pa pomeni tudi potrditev lokacije tvorbe v lumnu želodca (del B).

meru velikega trihobezoarja, ki se razteza v dvanajstnik in tanko črevo ter povzroča zaporo, je značilna razširitev črevesnih vijug, možni so tudi zračno-tekočinski nivoji (1, 5). Endoskopska preiskava zgornjih prebavil se opravi v primeru nejasne diagnoze in za ugotovitev sestave trihobezoarja. Ob endoskopiji in tudi operativni odstranitvi trihobezoarja je njegova značilna barva rjavo-črna, ne glede na osnovno barvo las. Do obarvanja pride zaradi denaturacije beljakovin v kislem želodčnem soku. Značilno je tudi lesketanje, zaradi zadrževanja muku-sa (slika 2) (1, 4).

Vrsta zdravljenja trihobezoarja je odvisna od njegove velikosti. Endoskopsko zdravljenje je možno le pri trihobezoarjih manjših premerov. Pred odstranitvijo je potrebno mehanično drobljenje in kemično raztapljanje z raznimi spojinami, kar je zaradi velikosti, gostote in trdnosti trihobezoarja mnogokrat neuspešno. Ob drobljenju in endoskopiji lahko košček trihobezoarja zdrsne skozi pilorus in povzroči distalno zaporo prebavnega trakta. Čeprav je endoskopski poseg najučinkovitejša metoda odstranjevanja tujkov iz zgornje prebavne cevi, se je endoskopska odstranitev trihobezoarjev v številnih primerih izkazala za pomanjkljivo metodo zdravljenja in je bil potreben kirurški poseg (2, 6). Še do nedav-

nega je bila operacija z laparotomijo pri odstranjevanju trihobezoarja metoda izbora, v zadnjih letih pa se vedno bolj uveljavlja laparoskopija (6, 9). Laparoskopija ima številne prednosti v primerjavi z laparotomijo, in sicer manj bolečin, manj pooperativnih zapletov (okužbe ran, pljučnice), potreben je krajši čas hospitalizacije, zelo pomemben pa je tudi kozmetični učinek. Vendarle je laparoskopska metoda zaradi redkosti trihobezoarja, manj izkušenj s tem posegom in velikosti ter razsežnosti tvorbe včasih tudi neuspešna, za razliko od laparotomije, ki je učinkovita v večini primerov (6, 9). Pri obeh metodah se med operacijo opravi gastrotomija za odstranitev trihobezoarja in eksploracija tankega črevesja.

V sklopu zdravljenja je zelo pomembna tudi psihiatrična obravnava ter razreševanje vzroka trihotilomanije in trihofagije, priporoča se pogovor s starši in nadaljnje svetovanje (4). Farmakološko zdravljenje trihotilomanije je po številnih raziskavah še nedodelano, dokazano pa je bilo, da uporaba fluoksetina in drugih selektivnih zaviralcev prevzema serotonina (angl. *selective serotonin reuptake inhibitors*, SSRI) učinkovito prispeva k zmanjšanju trihotilomanije pri otrocih (5, 13).

## ZAKLJUČEK

Na trihobezoar je treba pomisliti pri otrocih z bolečino v trebuhu in drugimi nespecifičnimi simptomi prebavnega trakta, s tipno rezistenco ali občutljivostjo v epigastriju, hujšanjem, občutkom hitre sitosti, plešavostjo in z mikrocitno anemijo zaradi pomanjkanja železa, zlasti ob prisotnosti psihiatričnih motenj. Predstavljen klinični primer prikazuje pomembnost temeljite anamneze pri deklici s trihobezoarjem in uspešnost diagnostičnih metod in kirurškega zdravljenja. Pooperativno je pri otrocih potrebno striženje dolgih las, zelo pomembna je tudi obravnava pri pedopsihiatru za preprečitev ponovitve.



**Slika 2.** Trihobezoar dolžine 12 cm.

## LITERATURA

1. Friedlander FC, Kushlick P. Trichobezoar. Arch Dis Child. 1954; 29 (148): 556–60.
2. Skok P, Ocepek A, Čeranić D, et al. Tujki v zgornji prebavni cevi in nujni endoskopski posegi - pregled desetletnega obdobja. Zdrav vestn. 2005; 74 (7-8): 423–7.
3. Paparoupa M, Schuppert F. Trichobezoar. Mayo Clin Proc. 2016; 91 (2): 275–6.
4. Novak AB, Zupančič Ž, Plut D, et al. Rapunzel syndrome: A rare form of trichobezoar in the stomach with some extension into the small intestine. Acta Dermatovenerol Alp Pannonica Adriat. 2018; 27 (3): 155–7.
5. Cannalire G, Conti L, Celoni M, et al. Rapunzel syndrome: An infrequent cause of severe iron deficiency anemia and abdominal pain presenting to the pediatric emergency department. BMC Pediatr. 2018; 18 (1): 125.
6. Gorter RR, Kneepkens CMF, Mattens ECJL, et al. Management of trichobezoar: Case report and literature review. Pediatr Surg Int. 2010; 26 (5): 457–63.
7. Pace AM, Fearn C. Trichobezoar in a 13 year old Male: A case report and review of literature. Malta Med J. 2003; 15 (1): 39–40.
8. Bashir EA, Samiullah, Sadiq MA, et al. Rapunzel syndrome. J Ayub Med Coll Abbottabad. 2010; 22 (4): 218–20.
9. Jatal SN. Extremely unusual case of gastrointestinal trichobezoar. World J Clin Cases. 2015; 3 (5): 466–9.
10. Hassan AA, Panesar KJ. The Rapunzel syndrome: a rare presentation of trichobezoar. Ulster Med J. 1989; 58 (1): 94–6.
11. Vaughan EDJ, Sawyers JL, Scott HWJ. The Rapunzel syndrome. An unusual complication of intestinal bezoar. Surgery. 1968; 63 (2): 339–43.
12. Maini A, John J. Trichobezoar requiring surgical intervention. JAAPA. 2018; 31 (9): 32–4.
13. Swedo SE, Leonard HL, Rapoport JL, et al. A double-blind comparison of clomipramine and desipramine in the treatment of trichotillomania (hair pulling). N Engl J Med. 1989; 321 (8): 497–501.

Prispelo 14. 7. 2021