

Bohm®, Laboratorios Bohm, Fuenlabrada, Madrid) según la dosis y pauta recomendadas por el fabricante. Tras haber ingerido un total de 225 g de PEG (15 sobres monodosis) diluidos en 3.750 ml de agua, presentó un cuadro progresivo de alteración del comportamiento, con agitación, agresividad y posteriormente desorientación y disminución del nivel de conciencia, por lo que finalmente se la trasladó al servicio de urgencias. A su llegada la paciente se encontraba consciente aunque bradipsíquica, agitada, desorientada en tiempo y lugar, con hipoprosxia y pérdida de la memoria para hechos recientes. Las constantes habituales (temperatura, presión arterial y frecuencia cardíaca) eran normales. La exploración neurológica no reveló signos de focalidad. El resto de la exploración física no evidenció hallazgos patológicos. El hemograma presentaba 13.330 leucocitos/ μ l con fórmula normal. La bioquímica sérica, la gasometría arterial y la analítica urinaria se encontraban dentro de márgenes normales. La determinación de tóxicos en orina resultó negativa. Las radiografías de tórax y abdomen, el electrocardiograma y la tomografía computarizada craneal resultaron igualmente normales. La paciente no había tomado fármacos ni se habían detectado alteraciones en el comportamiento o en el ritmo sueño/vigilia en los días previos. Se ingresó a la paciente con el diagnóstico de SCA, se inició tratamiento con tiaprida (200 mg/8 h) y, a las 8 h del ingreso, se realizó una nueva analítica sistemática que reveló de nuevo normalidad de todos los parámetros, salvo hipofosfatemia de 1,3 mg/dl (valores normales: 3-4,2 mg/dl). Los valores de calcio y parathormona se encontraban dentro de los límites normales. La paciente evolucionó de forma favorable; a las 24 h del ingreso se encontraba asintomática, la exploración neurológica era normal y en una nueva determinación de las concentraciones de fósforo la cifra era de 1,9 mg/dl. A los 4 días del ingreso se realizó una tomografía computarizada craneal de control, que continuaba siendo normal. Las cifras de fósforo se habían normalizado cuando se le dio el alta (a los 5 días del ingreso). La colonoscopia se realizó durante el ingreso tras completar la preparación colónica con enemas de limpieza con fosfato monosódico/bisódico (Enema Casen®, Laboratorios Casen-Fleet, Utebo, Zaragoza), con buena tolerancia y sin apreciarse hallazgos patológicos.

La limpieza intestinal previa a la colonoscopia se asocia ocasionalmente con la aparición de alteraciones iónicas que por lo general cursan de forma subclínica. Entre ellas la hiponatremia es la que se describe con mayor frecuencia (hasta en un 7,5% de las exploraciones). Sin embargo, su aparición se ha relacionado con el incremento de la secreción de hormona antiidiurética inducido por el estímulo de receptores no osmóticos asociados al dolor y a la manipulación intestinal derivada de la propia colonoscopia, más que con el empleo de distintas soluciones de limpieza previo a la exploración¹. Diversos estudios han comparado las alteraciones hidroelectrolíticas secundarias al uso de las 2 preparaciones utilizadas con mayor asiduidad (PEG y fosfato sódico)²⁻⁴. En todos ellos se ha descrito una mayor tendencia al desarrollo de inestabilidad hemodinámica y desequilibrios hidroelectrolíticos (fundamentalmente hiperfosfatemia e hipopotasemia) tras el empleo de soluciones de fosfato sódico, sobre todo en pacientes de edad avanzada o con enfermedades de riesgo previas.

La aparición de hipofosfatemia tras el empleo de soluciones balanceadas de PEG es un efecto secundario de descripción excepcional y patología no aclarada. Únicamente se ha descrito en la bibliografía en el reciente estudio de Marín Gabriel et al⁵, quienes lo observan hasta en el 17,7% de los pacientes preparados con PEG y sin documentar síntomas clínicos asociados. En nuestro caso, la paciente desarrolló un cuadro neuropsiquiátrico compatible con SCA o *delirium*, de acuerdo con los criterios diagnósticos de la cuarta edición del *Manual diagnóstico y estadístico de los trastornos mentales*⁶. Dicha alteración se puso en relación con la hipofosfatemia grave que se detectó tras el ingreso, una vez descartadas otras posibles causas intra o extracraneales (metabólicas, cardiopulmonares, asociadas a otras enfermedades sistémicas o a la toma de fármacos o tóxicos) tras la realización de un anamnesis detallada y de pruebas de imagen y determinaciones analíticas completas. En una revisión en MEDLINE de la bibliografía (1966-2004) sólo hemos encontrado cuadros de SCA secundario a hipofosfatemia grave en el contexto de pacientes con anorexia nerviosa durante la fase de realimentación^{7,8}. Tampoco se encuentra documentada la aparición de hipofosfatemia tras la toma de soluciones balanceadas de PEG, salvo en el estudio español antes mencionado⁵. Por otro lado, resulta llamativa la normalización espontánea de las concentraciones de fósforo observada en este caso, por lo que no fue precisa la administración de suplementos dada la rápida mejoría del cuadro clínico con tratamiento sintomático. En conclusión, creemos que, a pesar de la eficacia y seguridad contrastadas del empleo de soluciones balanceadas de PEG en la preparación intestinal previa a la colonoscopia, se debe tener siempre en cuenta la posible aparición de alteraciones electrolíticas secundarias que pudieran

explicar cuadros clínicos de instauración aguda como el descrito. Igualmente son precisos estudios adicionales que confirmen la posible relación entre el PEG y la hipofosfatemia y que aclaren sus posibles mecanismos patogénicos.

C. DE LA SERNA HIGUERA, S.J. RODRÍGUEZ GÓMEZ,
A. FUENTES CORONEL, J. MARTÍNEZ MORENO, A. PÉREZ
VILLORIA, M.I. MARTÍN ARRIBAS
y A. BETANCOURT GONZÁLEZ
Sección de Aparato Digestivo. Hospital Virgen de la Concha.
Zamora. España.

BIBLIOGRAFÍA

- Cohen CD, Keuneke C, Schiemann U, Schroppel B, Siegert S, Rascher W, et al. Hyponatremia as a complication of colonoscopy. *Lancet*. 2001;357:282-3.
- Vanner SJ, MacDonald P, Paterson WG, Prentice PS, Da Costa LR, Beck IT. A randomised prospective trial comparing oral sodium phosphate with standard polyethylene glycol-based lavage solution (Golytely) in the preparation of patients for colonoscopy. *Am J Gastroenterol*. 1990;85:422-7.
- Thomson A, Naidoo P, Crotty B. Bowel preparation for colonoscopy: a randomised prospective trial comparing sodium phosphate and polyethylene glycol in a predominantly elderly population. *J Gastroenterol Hepatol*. 1996;11:103-7.
- Ell C, Fischbach W, Keller R, Dehe M, Mayer G, Schneider B, et al. A randomized, blinded, prospective trial to compare the safety and efficacy of three bowel cleansing solutions for colonoscopy (HSG 01). *Endoscopy*. 2003;35:300-4.
- Marín Gabriel JC, Rodríguez Muñoz S, De la Cruz Bértolo J, Carretero Gómez JF, Muñoz Yagüe MT, Manzano Alonso R, et al. Alteraciones electrolíticas y colonoscopia: preparación, edad y procedimiento. *Rev Esp Enf Ap Dig*. 2003;95:863-75.
- American Psychiatric Association. *Manual diagnóstico y estadístico de los trastornos mentales*. 4.ª ed. Madrid: Masson; 1995.
- Kohn MR, Golden NH, Shenker IR. Cardiac arrest and *delirium*: presentation of the refeeding syndrome in severely malnourished adolescents with anorexia nervosa. *J Adolesc Health*. 1998;22:239-43.
- Hall DE, Kahan B, Snitzer J. Delirium associated with hypophosphatemia in a patient with anorexia nervosa. *J Adolesc Health*. 1994;15:176-8.



Artículo 96.484

SÍNDROME DE RAPUNZEL

Sr. Director: El síndrome de Rapunzel es una entidad rara que se presenta en personas jóvenes con trastornos psiquiátricos con tricofagia. Estos pacientes presentan un tricobezoar cuyo cuerpo se localiza en el estómago y funciona como ancla, y que además cuenta con una extensión distal que llega al intestino delgado o más allá. El cabello se acumula en el transcurso de meses o años¹⁻⁴, y por efecto de acordeón sobre la mucosa puede llegar a ocasionar obstrucción intestinal, isquemia, necrosis y perforación como complicaciones⁵. En 1968 Vaughan et al⁵ describieron por primera vez 2 casos, a los que se suman otros 26 casos encontrados en el Index Medicus (MeSH: *Rapunzel syndrome*) hasta marzo de 2004¹⁻²⁷.

Presentamos el caso de una paciente mexicana de 23 años de edad, madre de 2 hijos, que vive en unión libre y cuyo último parto fue un mes antes de su ingreso. Acudió al hospital por dolor intermitente en el hipocondrio izquierdo y epigástrico de 2 meses de evolución, junto con hiporexia, náuseas, saciedad prematura y vómito posprandial, además de pérdida de peso no cuantificada. En la exploración física se encontró una masa palpable en el epigastrio e hipocondrio izquierdos, móvil, no dolorosa, de 15 x 15 cm, con palidez de piel y tegumentos, importante, halitosis, presión ar-

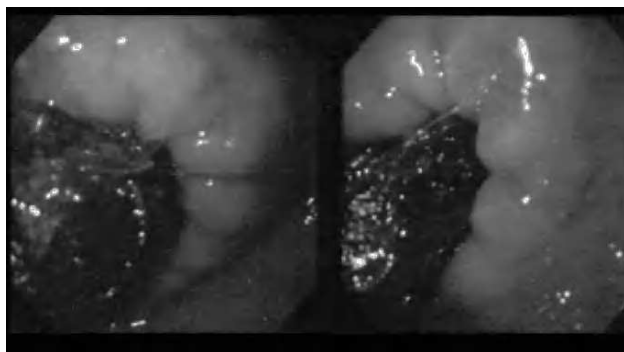


Fig. 1. Endoscopia de tubo digestivo alto que muestra un tricobezoar con extensión del pelo a través del píloro hacia el intestino delgado.



Fig. 2. Corte axial de la tomografía simple de abdomen que muestra el tricobezoar como enfisema gástrico y duodenal.

terial normal y frecuencia cardíaca de 70 lat/min. No había evidencia clara de áreas de alopecia. Los resultados de laboratorio demostraron: 5,360 leucocitos (neutrófilos: 52%; linfocitos: 40%), hemoglobina de 9 g/dl, volumen corpuscular medio de 76,2 fl, hemoglobina corpuscular media de 23,8 pg, concentración media de hemoglobina corpuscular de 31,3 g/dl; hipocromía, anisocitosis y microcitosis positivas, y albúmina de 3,3 g. Al realizar una endoscopia se encontró en la totalidad de la cámara gástrica un cuerpo extraño, formado de pelo, que impedía el paso del endoscopio hacia el duodeno y se extendía más allá del píloro, el cual correspondía a un tricobezoar, con probable componente intestinal (fig. 1). La paciente negó la tricofagia. Además se realizó una tomografía computarizada que mostró un enfisema gástrico e intestinal (una masa intragástrica con extensión intestinal) que apoyaba el diagnóstico de un bezoar gastrointestinal (fig. 2). Se practicó una laparotomía en la que se encontró un tricobezoar de 13 x 28 cm, con extensión hacia el intestino delgado (yeyuno). Se logró extraer el tricobezoar sólo con gastrostomía y pulsión hacia la gastrostomía del componente yeyunal (figs. 3 y 4), se practicó gastroplastia y el acto quirúrgico terminó sin incidentes o complicaciones. La evolución quirúrgica de la paciente fue favorable y se le dio de alta al quinto día del postoperatorio. La valoración psiquiátrica reveló una relación conyugal disfuncional, así como distimia más trastorno de ansiedad general con tricofagia de un año de evolución. Se inició tratamiento con paroxetina (20 mg/día) y al cabo de 10 meses de control no había habido recidiva.

El término bezoar deriva de las palabras *badzher* del árabe, *padzhar* del persa y *beluzaar* del hebreo, que significan «antídoto». Se pensaba que los bezoares, que se obtenían de animales, tenían poderes curativos^{9,17}. Actualmente los bezoares se definen como cuerpos extraños formados en el estómago y/o intestino delgado debido a una acumulación de la sustancia deglutida¹⁹. Se han descrito 4 tipos de acuerdo con su composición: tricobezoar, fitobezoar, lactobezoar y misceláneos²⁷. Se han comunicado casos en pacientes de 1 a 56 años de edad, con mayor incidencia a la edad de 15 a 20 años (hasta un 80% en menores de 30 años) y el 90% de los casos se presentan en el sexo femenino^{6,8,12,13,16,26}.



Fig. 3. Extracción quirúrgica del tricobezoar a través de una gastrostomía y de la trenza de éste que se extendía hasta el yeyuno.



Fig. 4. Pieza quirúrgica que muestra un tricobezoar de 17 x 16 cm con la forma del estómago y una trenza que se extendía hasta el intestino delgado.

Rapunzel procede del cuento de hadas de los hermanos Wilhelm y Jacob Grimm escrito en 1812, donde describen la historia de una doncella prisionera en una torre de la que lanzaba su larga cabellera por una ventana para que su príncipe enamorado pudiera subir hasta donde se encontraba ella⁵.

Los bezoares aumentan de tamaño por acumulación no sólo de los cabellos ingeridos, ya que éstos forman una madeja junto con el moco, ácido, pepsina y colonias bacterianas. Lee²⁸ refiere que el dato de tricotilomanía y tricofagia se obtiene en menos del 50% de los pacientes. El tricobezoar es invariablemente negro (independientemente del color natural del cabello del paciente) debido a la desnaturalización de las pro-

teínas del pelo por la acción del ácido clorhídrico del estómago, brillante por el moco retenido y de mal olor por la descomposición de los residuos alimentarios retenidos en la masa².

Los síntomas de la enfermedad son los siguientes: masa móvil en el epigastrio (70%), náuseas y vómitos (64%), hematemesis (61%), pérdida de peso (38%) y diarrea o estreñimiento (32%). La presencia de los síntomas depende de la elasticidad del estómago, del tamaño del bezoar y de la aparición o no de complicaciones^{6,11,29}.

La ultrasonografía objetiva una masa ecogénica densa que produce una sombra acústica posterior bien definida²². El estudio contrastado es útil, pues revela el bario mezclado o alrededor de una masa amorfa intragástrica que generalmente es móvil, y permite diferenciarlo de un tumor maligno¹⁴. También se observa cómo el bario queda atrapado en el intersticio del bezoar, lo que produce una imagen de «superficie en panel de abejas»²⁹. La tomografía computarizada muestra gran cantidad de material en la cámara gástrica con burbujas de gas en la pared, que se denomina enfisema gástrico²⁴. La endoscopia digestiva es el método diagnóstico de elección, ya que se ha demostrado que con la radiografía de las vías digestivas sólo se diagnostica una cuarta parte de los casos identificados endoscópicamente^{28,29}.

Las complicaciones son obstrucción, perforación o hemorragia. La mortalidad comunicada por Debakey y Ochner³⁰ para estas complicaciones es del 47%.

Se recomienda un adecuado seguimiento clínico y psiquiátrico para prevenir la recurrencia, que se presenta en aproximadamente un 20% de los casos²⁸.

El objeto del tratamiento del síndrome de Rapunzel consiste en la eliminación completa del bezoar del tracto gastrointestinal mediante gastrotomía y las enterotomías necesarias, además de la resolución adecuada de las complicaciones que pudieran presentarse. De acuerdo con la bibliografía relativa a esta entidad, todos los casos presentan síndrome anémico con pérdida de peso, masa abdominal y áreas de alopecia, las cuales son evidencia presumible de tricobezoar. Si la endoscopia y/o el estudio radiográfico revelan un bezoar con extensión intestinal, indudablemente estaremos frente a un síndrome de Rapunzel. Se recomienda un tratamiento quirúrgico agresivo para evitar las complicaciones propias de esta entidad.

O. NORIEGA MALDONADO

Departamento de Cirugía General. Hospital Central Dr. Ignacio Morones Prieto. San Luis Potosí. México.

BIBLIOGRAFÍA

- Baeza-Herrera C, Franco-Vázquez R. Gastric trichobezoar and the Rapunzel syndrome. *Bol Med Hosp Infant Mex.* 1987;44:167-71.
- Wolfson PJ, Fabius RJ, Leibowitz AN. The Rapunzel syndrome: an unusual trichobezoar. *Am J Gastroenterol.* 1987;82:365-7.
- Uroz Tristán J, García Urgelles X, Melián Pérez-Marín S. Rapunzel syndrome: a report of a new case. *Cir Pediatr.* 1996;9:40-1.
- Sánchez-Maldonado W, Rodríguez-Coria DF, Luna-Pérez P. Rapunzel's syndrome (trichobezoar). *Rev Gastroenterol Mex.* 1997;62:284-6.
- Vaughan ED Jr, Sawyers JL, Scott HW Jr. The Rapunzel syndrome. An unusual complication of intestinal bezoar. *Surgery.* 1968;63:339-43.
- Deslypere JP, Praet M, Verdonk G. An unusual case of the trichobezoar: the Rapunzel syndrome. *Am J Gastroenterol.* 1982;77:467-70.
- Hassan AA, Panesar KJ. The Rapunzel syndrome: a rare presentation of trichobezoar. *Ulster Med J.* 1989;58:94-6.
- Azuara-Fernández HM, Azuara-Gutiérrez H, Hernández-Márquez N, Revilla-Cepeda E, Aportela A, Andrade-Sepúlveda VR. Intestinal trichobezoar: differential diagnosis in children with an abdominal mass. *Bol Med Hosp Infant Mex.* 1989;46:732-5.
- Balik E, Ulman I, Taneli C, Demircan M. The Rapunzel syndrome: a case report and review of the literature. *Eur J Pediatr Surg.* 1993;3:171-3.
- Duncan ND, Aitken R, Venugopal S, West W, Carpenter R. The Rapunzel syndrome. Report of a case and review of the literature. *West Indian Med J.* 1994;43:63-5.
- Pul N, Pul M. The Rapunzel syndrome (trichobezoar) causing gastric perforation in a child: a case report. *Eur J Pediatr.* 1996;155:18-9.
- Seker B, Dilek ON, Karaayvaz M. Trichobezoars as a cause of gastrointestinal obstructions: the Rapunzel syndrome. *Acta Gastroenterol Belg.* 1996;59:166-7.
- Senapati MK, Subramanian S. Rapunzel syndrome. *Trop Doct.* 1997;27:53-4.
- West WM, Duncan ND. CT appearances of the Rapunzel syndrome: an unusual form of bezoar and gastrointestinal obstruction. *Pediatr Radiol.* 1998;28:315-6.
- Sarin YK. Rapunzel syndrome. *Indian Pediatr.* 1998;35:682-3.
- Dalshaug GB, Wainer S, Hollaar GL. The Rapunzel syndrome (trichobezoar) causing atypical intussusception in a child: a case report. *J Pediatr Surg.* 1999;34:479-80.
- Singla SL, Rattan KN, Kaushik N, Pandit SK. Rapunzel syndrome – a case report. *Am J Gastroenterol.* 1999;94:1970-1.
- Kaspar A, Deeg KH, Schmidt K, Meister R. Rapunzel syndrome, an rare form of intestinal trichobezoars. *Klin Padiatr.* 1999;211:420-2.
- Faria AP, Silva IZ, Santos A, Avilla SG, Silveira AE. The Rapunzel syndrome – a case report: trichobezoar as a cause of intestinal perforation. *J Pediatr.* 2000;76:83-6.
- Hirugade ST, Talpallikar MC, Deshpande AV, Gavali JS, Borwankar SS. Rapunzel syndrome with a long tail. *Indian J Pediatr.* 2001;68:895-6.
- Uckun A, Sipahi T, Igde M, Uner C, Cakmak O. Is it possible to diagnose Rapunzel syndrome pre-operatively? *Eur J Pediatr.* 2001;160:682-3.
- Curioso-Vilchez WH, Rivera-Vega J, Curioso-Abrijo WI. Rapunzel syndrome: case report and literature review. *Rev Gastroenterol (Peru).* 2002;22:168-72.
- Azizzadeh A, Moldovan S, Scott BG. Image of the month. Rapunzel syndrome. *Arch Surg.* 2002;137:1443-4.
- Klipfel AA, Kessler E, Schein M. Rapunzel syndrome causing gastric emphysema and small bowel obstruction. *Surgery.* 2003;133:120-1.
- Gockel I, Gaedertz C, Hain HJ, Winckelmann U, Albani M, Lorenz D. The Rapunzel syndrome: rare manifestation of a trichobezoar of the upper gastrointestinal tract. *Chirurg.* 2003;74:753-6.
- Chintamani, Durkhure R, Jp S, Singhal V. Cotton bezoar – a rare cause of intestinal obstruction: case report. *BMC Surg.* 2003;3:5.
- Memon SA, Mandhan P, Qureshi JN, Shairani AJ. Recurrent Rapunzel syndrome – a case report. *Med Sci Monit.* 2003;9:CS92-CS4.
- Lee J. Bezoars and foreign bodies of the stomach. *Gastrointest Endosc Clin N Am.* 1996;6:605-19.
- Gutiérrez JO. Tricobezoar gástrico. *Rev Colom Cirugía.* 2000;15:30-2.
- Debakey M, Ochner A. Bezoars and concretions. A comprehensive review of the literature with an analysis of the 303 collected cases and presentation of 8 additional cases. *Surgery.* 1939;5:132-60.