



# Trikobezoarin Nadir Bir Formu: Rapunzel Sendromu Olgu Sunumu

Mustafa Ateş\*

\* Malatya Devlet Hastanesi, Genel Cerrahi Kliniği, Malatya

Rapunzel sendromu, dürtüsel saç çekme ve yeme alışkanlığı nedeni ile midede oluşan trikobezoarin duodenum ve jejunuma uzanması ile birlikte karında kitle ve gastrointestinal semptomların görüldüğü nadir bir durumdur. Bu yazıda, bulantı, kusma, karın ağrısı, anemi ve epigastrik kitle nedeni ile opere edilen, 12 yaşındaki bir kız hasta sunuldu. Laparotomide, anterior gastrotomi yapılarak dev trikobezoar ve uzun kuyruğu tamamen çıkarıldı. Ameliyat sonrası dönemde sorunsuz iyileşen hastada, psikiyatrik değerlendirmede, dürtüsel saç çekme (trikotillomani) ve depresyon olduğu tespit edildi.

**Anahtar Kelimeler:** Bezoar, Rapunzel sendromu, Trikotillomania, Trikofaji.

## A Rare Form of Trichobezoar: A Case of Rapunzel Syndrome

The Rapunzel syndrome consists of gastric trichobezoar with tail, epigastric mass and the gastrointestinal symptoms. A 12-year-old girl, underwent an operation for abdominal pain, nausea, vomiting, anemia and epigastric mass, was presented in this study. Giant trichobezoar with long tail was totally removed by laparotomy and single gastrotomy. Postoperative period was uneventful. A subsequent psychiatric consultation revealed trichotillomania and depression.

**Key Words:** Bezoar, Rapunzel syndrome, Trichotillomania, Trichophagia.

Bezoarlar yutulan yabancı maddelerin mide veya ince bağırsakta oluşturduğu intraluminal kitlelerdir.<sup>1,2</sup> Bezoarların çok nadir görülen bir formu olan Rapunzel sendromu, midedeki trikobezoarin duodenum ve jejunuma uzanması ile karında kitle ve gastrointestinal semptomların eşlik ettiği durum olarak adlandırılır<sup>(3,4)</sup>. Bu sendromun ismi, Grimm kardeşlerin masalındaki 12 yaşındaki uzun saçlı Rapunzel adlı kız kahramandan kaynaklanmakta olup, ilk defa 1968'de Vaughan adlı yazar tarafından tanımlanmıştır.<sup>4</sup> Bu makalede, Rapunzel sendromu saptanan bir olgu sunuldu.

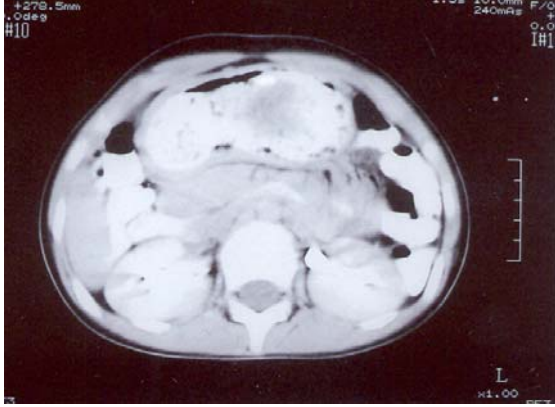
## OLGU SUNUMU

On iki yaşındaki kız çocuğu, şiddetli karın ağrısı, bulantı ve kusma ile acil servise başvurdu. Hastanın özellikle son bir yıldır, sürekli karın ağrısı, iştahsızlık ve yaklaşık 5 kg zayıflaması vardı. Fizik muayenesinde, karın hassas ve epigastriumu dolduran sert, yarı mobil kitleye rastlandı. Laboratuvar testlerinde demir eksikliği anemisi tespit edildi. Hastaya yapılan bilgisayarlı tomografi'de (BT) tüm mideyi dolduran, duodenum, jejunuma uzanan kitle ve onu çevreleyen kontrastlanma ile birlikte duodenojejunal bağırsak duvarında diffüz kalınlaşma gözlemlendi (Resim 1, 2A-2B). Yapılan gastroskopide, kardiadan başlayarak mideyi tamamıyla dolduran, gastroskopun geçişine izin vermeyen, safralı saç yumağı ile karşılaşıldı. Hastanın saç yemeyi (trikofaji) inkâr etmesine karşılık, aile çocuklarının küçük yaşta toprak, hatta bazen asfalt parçacıklarını yediğini, ayrıca son zamanlarda TV karşısında bilinçsizce saçlarını ve kanepe tüylerini yolarak yediğini belirtti.

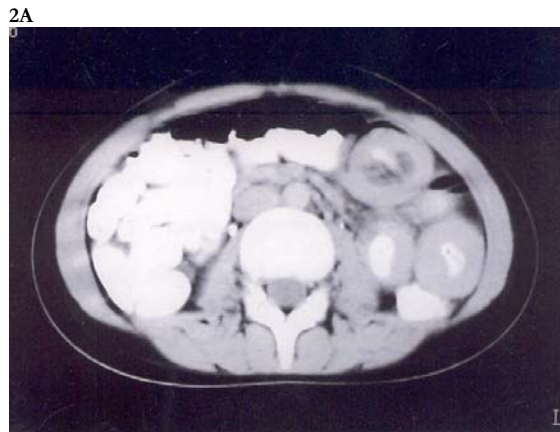
Gastrik bezoar ön tanısı ile genel anestezi altında, laparatomiyi takiben anterior gastrotomi yapıldı. Midenin şeklini alan kötü kokulu saç yumağının, duodenuma ve jejunuma uzandığı görüldü. Trikobezoar, mide, duodenum, jejunumdan yumuşak hareketler ve onu kayganlaştıran safra-mukus yardımı ile kolayca çıkarıldı (Resim 3). Operasyonda, mide mukozasında özellikle antrum çevresinde yaygın basıya bağlı ülser ve erozyon alanları gözlemlendi. Hastanın operasyon sonrası dönemi sorunsuzdu. Postoperatif psikiyatrik değerlendirmede,

trikotillomania ve depresyon tanısı konuldu.

**Resim 1:** Mide'de çevresi komtrast madde kaplı hipodens kitle.



**Resim 2A,2B:**Kitle, yer değiştirmiş duodenojejunal bileşke lümenine uzanmakta ve duodenojejunal bağırsak duvarında diffüz kalınlaşma.



**Resim 3:** Mide, duodenum ve jejunumdan çıkartılan trikobezoar ve kuyruğu



### TARTIŞMA

Bezoarlar, kaynaklandığı içeriğe göre, mide ve ince bağırsağın lümeninde şekillenen kitlelerdir. Bezoarların saç kıllarından oluşan tipi olan trikobezoar, genellikle mide yerleşimli olup, nadiren ince bağırsağa uzanır ve tıkanmaya neden olur.<sup>5</sup> Trikobezoarın çok nadir formu olan Rapunzel sendromu, bizim hastamızda olduğu gibi, trikobezoar kitlesinin büyük bir kısmının midede oluşması, saç örgüsü şeklinde dudenum ve jejunuma kadar uzanmasıdır.<sup>4</sup> Trikobezoarlara sıklıkla psikiyatrik hastalıklar eşlik eder ve %90 genç kızlarda

gözlenir.<sup>1,6,7</sup> Trikobezoarların oluşumunda altta yatan ana neden olarak gösterilen Trikotillomania, ilk defa literatürde 1889 da tanımlanmıştır.<sup>8</sup> Bu hastalarda dikkati çeken bulgu, her zaman olmamakla birlikte, saçlarını yolduktan kaynaklanan kısmi kelliktir (alopesi); fakat bu hastalar kaş, kirpik, kol, bacak ve genital bölge kıllarını da yollabilirler.<sup>6</sup>

Dürtüsel saç yolma anlamına gelen Trikotillomania ve trikofajinin altında yatan neden tam olarak bilinmemekle birlikte, predispozan psikopatolojik faktörler arasında, stres, huzursuz aile ortamı, anne ve/veya baba kaybı, okul değişikliği gibi emosyonel faktörler sayılabilir.<sup>9</sup> Trikotillomanianın görülme sıklığı % 0.6-1.6 arasındadır.<sup>10</sup> Bu hastaların %30'unda trikofaji gözlenir ve bunların sadece %1'inde cerrahi gerektirecek trikobezoarlar ortaya çıkar.<sup>11</sup> Trikobezoar nedeni ile tedavi edilen hastaların hemogramlarında sık tespit edilen demir eksikliği anemisinin hastada pika'ya neden olarak etiolojide rol alabileceği literatürde bildirilmesine<sup>12,13</sup> karşın, daha çok midedeki bası ülserleri nedeni ile geliştiği kabul edilmektedir.<sup>1,6,8,14,15</sup> Bizim hastamızda da demir eksikliği ile birlikte antrumda yaygın bası ülserleri gözlemlendi. Bezoarlar, bası ülserlerinin yanı sıra hastalarda kanama (%6), ileus ve perforasyon (%10), sekretuar diare ve malabsorbsiyon meydana getirebilirler.<sup>15,16</sup> Ayrıca, literatürde intestinal nekroz ve perforasyon nedeni ile ölen vakalar da bildirilmiştir.<sup>3,5</sup> Bu hastaların nonspesifik gastrointestinal (bulantı, kusma, karın ağrısı, ağız kokusu) yakınmaları ile birlikte kısmi kellik, epigastrik kitle, tanıda en yardımcı bulgulardır.<sup>3,16</sup> Düz grafi tanıda faydasız olup, ultrasonografi ile vakaların % 88'inde akustik gölge veren geniş kitle gözlenir. BT'de vakaların %97'sinde midede kitle içinde serbest hava görülürken mide mukozası ile kitle arasında kontrast hattı dikkat çekicidir.<sup>8,17,18</sup>

Trikobezoarlar birçok yöntemle çıkarılabilir. Küçük trikobezoarlar lazer, su, enzimatik solüsyonlar ve ekstrakorporal şok dalgaları ile parçalanıp endoskopi yardımı ile alınabilirler ya da laparoskopi ile yapılan küçük insizyon yardımı ile çıkarılabilirler. Bu yüzden büyük boyutlara ulaşmadan erken teşhisi önemlidir. Ancak büyük ve ince bağırsaklara uzanan trikobezoarlarda açık cerrahi tek tedavi seçeneğidir.<sup>7,8,19</sup> Cerrahi operasyonu takiben hastalarda nadir de olsa nüks gelişebildiği rapor edilmiştir. Eryılmaz ve ark.<sup>14</sup> ilk operasyondan 7 yıl

sonra, Memon ve ark.<sup>20</sup> 2 yıl sonra hastalarında nüks geliştiğini rapor etmişlerdir. Nüks gelişimini önlemek için cerrahi tedaviyi takiben, psikiyatrik konsültasyonun tamamlayıcı tedavi olduğu gözardı edilmemelidir.<sup>6,14,20</sup> Psikiyatrik değerlendirme sonucunda, hastamız trikotillomania ve depresyon tanısı ile tedavi edildi.

Sonuç olarak, Trikobezoarın nadir bir formu olan Rapunzel sendromunun ve komplikasyonların tedavisi cerrahidir. Trikobezoar nüksünü önlemek için psikiyatrik tedaviden de faydalanılmalıdır.

## KAYNAKLAR

1. Dalshaug GB, Wainer S, Hollaar GL. The rapunzel syndrome (trichobezoar) causing atypical intussusception in a child: a case report. *Jpediatr Surg* 1999;34:479-80
2. Escamilla C, Robles-Camplos R, Parrilla-Paricio P. Intestinal obstruction and bezoars. *J Am Coll Surg* 1994 ;43 :63-5
3. 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
4. Vaughan ED Jr, Sawyers JL, Scott HW Jr. The Rapunzel syndrome. An Unusual complication of intestinal bezoar. *Surgery* 1968;63:339-43
5. Ventura DE, Herbella FAM, Schettini ST, Delmonte C. Rapunzel syndrome with a fatal outcome in a neglected child. *J pediatr Surg* 2005 ;40:1665-7
6. Frey AS, McKee M, King RA, Martin A. Hair apparent: Rapunzel syndrome *Am J Psych* 2005;162:242-6
7. Nirasawa Y, Mori T, Ito Y, Tanaka H, Seki N, Atomi Y. Laparoscopic removal of a large gastric trichobezoar. *J Pediatr Surg* 1998; 33:663-5
8. Alsafwah S, Alzein M. Small bowel obstruction due to trichobezoar: role of upper endoscopy in diagnosis. *Gastrointest Endosc* 2000; 52:784-6
9. Miltenberger RG, Rapp JT, Long ES. Habit reversal treatment manual for trichotillomania, in Tic Disorders, Trichotillomania, and Other Repetitive Behavior Disorders: Behavioral Approaches to Analysis and Treatment. Edited by Woods D, Miltenberger RG. Boston, Kluwer Academic, 2001, pp 170-95
10. O'Sullivan RI, Mansueto CS, Lerner EA, Miguel EC. Characterization of trichotillomania: a phenomenological model with clinical relevance to obsessive-compulsive spectrum disorders. *Psychiatr Clin North Am* 2000;587-604
11. Bouwer C, Stein DJ. Trichobezoars in trichotillomania: case report and literature overview. *Psychosom Med* 1998;60:658-60
12. McGehee FT, Buchanan GR. Trichophagia and trichobezoar: etiologic role of iron deficiency. *J Pediatric* 1980;Dec:946-8
13. Oski FA: The nonhematologic manifestation of iron deficiency, *Am J Dis Child* 1973;133:315
14. Eryılmaz R, Sahin M, Alimoğlu O, Yıldız MK, A case of Rapunzel syndrome. *Ulus Travma Derg*, 2004; 10:260-5
15. Babl FE, Hyams JS, Justinich CJ. Index of suspicion. Case 3. Diagnosis: trichobezoar. *Pediatr Rev* 1996;17:99-101
16. Goldstein SS, Lewis JH, Rothstein R. Intestinal obstruction due to bezoars. *Am J Gastroenterol* 1984;79:313-8
17. Malpani A, Ramani SK, Wolverson MK. Role of sonography in trichobezoars. *J Ultrasound Med* 1988; 7:661-663
18. Ripolles T, Garcia-Aguayo J, Martinez MJ, Gil P. Gastrointestinal bezoars: sonographic and characteristics. *Am J Roentgenol* 2001;177:65-7
19. De Backer A, Van Nooten V, Vandenas Y. Huge gastric trichobezoar in a 10-year-old girl: case report with emphasis on endoscopy in diagnosis and therapy. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1999; 28:513-5
20. Memon SA, Mandahan P, Quresh JN, Shairani AJ. Recurrent Rapunzel syndrome-a case report. *Med Sci Monit* 2003 ;9:92-4

## Yazışma Adresi :

Dr. Mustafa ATEŞ

Çösnük Mah. Buhara Cad.

Doğu kent Sitesi C1 Blok No:10

44080, Malatya /TÜRKİYE

Fax : 422 324 06 50

Tel : 422 311 03 12

Gsm : 544 743 92 94

E-Posta : drmustafaates@hotmail.com