

Tricobezoar congénito: a propósito de un caso

Drs. María Isabel Palmero, Francisco Pérez, Susana León, Ricardo González

Servicio de Pediatría, Maternidad "Concepción Palacios."

RESUMEN: El tricobezoar congénito en el período neonatal es una entidad poco habitual. Se presenta la evolución clínica de una recién nacida femenina portadora de un tricobezoar congénito, el primero diagnosticado en la Maternidad "Concepción Palacios". La madre de la recién nacida era portadora de una prueba de sífilis reactiva. Se describe el manejo médico con antibióticoterapia, y estimulaciones rectales. No hubo necesidad de abordaje quirúrgico, ni endoscópico. La paciente evolucionó en forma clínica satisfactoria y fue egresada a los 24 días.

Palabras clave: Tricobezoar. Treponematosis-sífilis. Atriquia. Alopecia. Recién nacido.

SUMMARY: Congenital tricobezoar in the neonatal period is rare entity. The clinical evolution of a newborn female with a congenital trichobezoar, the first diagnosed at the Maternity "Concepción Palacios", in the neonatal period, is presented. The newborn's mother had a reactive serological test for syphilis. The medical treatment with antibiotic-therapy plus rectal stimulations, is described. There was no need for surgery or endoscope. The patient had a clinical satisfactory evolution and leaves the hospital on the 24 day.

Key words: Trichobezoar. Treponematosis-syphilis. Atrichia. Alopecia. Newborn.

INTRODUCCIÓN

La palabra bezoar, significa preservar el veneno, es de origen árabe y deriva del vocablo persa *padzahr*, en que el "pad" quiere decir proteger contra, "zahr" veneno, pudiéndose definir como antídoto o contra veneno (1,2); y proviene, al parecer, de la cabra del mismo nombre, oriunda del medio oriente (montes del Tauro), que al lamerse ingiere una abundante cantidad de pelos que se acumulan en el estómago formando una verdadera bola pilífera. Las alteraciones mentales son una constante en los humanos con esta patología (3,4). El pelo hace su aparición rudimentaria a la octava semana de gestación, comienza por las cejas y la frente; en el cuero cabelludo hay más de 100 000 pelos. La alopecia significa caída del cabello, sin embargo desde el punto de vista clínico se interpreta como falta de pelo (5,6). La atriquia congénita o alopecia total aislada es una rara enfermedad del desarrollo del cabello, de transmisión autosómica recesiva, aunque se han descrito casos de transmisión autosómica dominante y algunos casos esporádicos

(7); en la atriquia congénita, el cabello suele ser normal al nacer, empieza su caída entre el primer y el sexto mes y no existe repoblación posterior, pudiendo encontrar folículos pilosos escasos o hipoplásicos (5). Se encuentran dentro del grupo de las alopecias: a) alopecias por aplasia del folículo piloso (alopecias no cicatrizales congénitas) y entre ellas: atriquia total, regional e hipotricosis; b) alopecias por destrucción del folículo piloso (alopecias cicatrizales congénitas); en la treponematosis, puede observarse alopecia, ésta forma parte del secundarismo luético (7). El tricobezoar es una entidad casi con exclusividad de niños pequeños y jóvenes, poco vista en el período neonatal y es consecuencia de ingerir cabellos arrancados (tricrofagia) o ingestión de fibras de alfombras de lana, vestidos (8); esto produce un cuadro clínico caracterizado por epigastralgia, disminución del apetito, tumor móvil en epigastrio, dispepsia, pérdida de peso, vómitos intermitentes, intolerancia progresiva a los alimentos, anemia y desnutrición de

grado variable, se han descrito casos de tricobezoar que han provocado suboclusión intestinal (9). La presente comunicación se basa en lo excepcional de esta patología en el neonato, por la precocidad de la caída del pelo, inclusive *in útero*, con formación de un tricobezoar sin llegar a producir obstrucción intestinal. Es el primer caso diagnosticado en la Maternidad "Concepción Palacios" en el período neonatal.

Caso clínico

Se trata de un recién nacido pretérmino femenino, adecuado para la edad de gestación. Madre de 16 años, con embarazo no controlado, de 30 semanas por fecha de última menstruación y 34 semanas + 5 días por Ballard; ecosonograma: 05-05-2005: embarazo de 32 semanas de gestación con feto en podálica, perfil biofísico: 8/10 puntos. Nace por cesárea, bajo anestesia general por presentación podálica; no lloró y no respiró al nacer. Apgar de 4, 7 y 9 puntos. Peso 2 000 g, talla 42 cm, circunferencia cefálica 29 cm. Durante su hospitalización presentó: apneas y síndrome de dificultad respiratoria: edema pulmonar no cardiogénico, que mejoró con citrato de cafeína, por 21 días y oxígeno con manguera, con fracción expirada, de 0,6 % por 5 días.

Sepsis (meningitis): por sus antecedentes y al examen físico con hepato-esplenomegalia, descamación palmo-plantar, se instala tratamiento con penicilina cristalina 100 000 U x kg x día + gentamicina 5 mg x kg x día, por 6 días; se practica punción lumbar, VDRL, y proteína C: 25,8 mg/dL; en vista, de que el líquido céfalo raquídeo reporta 144 células con predominio de mononucleares, con VDRL reactivo (128 diluciones), se aumenta la dosis de penicilina cristalina a 200 000 U x kg x día cada 8 horas, por 15 días; al 7° día presenta deterioro clínico y paraclínico, la hematología reporta: reacción leucemioide (40 000 glóbulos blancos) y trombocitopenia. Se rota a meropenem a 60 mg x kg x día, por 7 días + vancomicina a 30 mg x kg x día, por 12 días y anfotericina b a 1,5 mg x kg x día, por 10 días, recibió simultáneamente, por factores de coagulación alterados, (trombocitopenia y anemia) plasma fresco congelado 3 unidades; vitamina K1, por 5 días; concentrado plaquetario 3 unidades y concentrado globular 3 unidades. Desde su nacimiento presenta, gran distensión abdominal y hepato-esplenomegalia, piel seca con descamación palmo-plantar, escaso cabello con zonas de alopecia en ambas regiones parietales, uñas presentes de configuración normal y cejas con poco cabello;

ingresa al servicio al 3^{er} día y en vista de la gran distensión abdominal sin reporte de evacuación se estimula el recto, obteniéndose evacuación meconial con abundante cabello, (Figura 1: heces con cabello y meconio); sigue presentando evacuaciones con cabello, heces transicionales (Figura 2: heces con escaso cabello) y luego heces definitivas hasta el 6^{to} día. Se plantea el diagnóstico de teratoma sacrococcígeo y tricobezoar; en la radiología simple (Figura 3), se evidencia gran dilatación de asas intestinales y algunos niveles hidroaéreos, sin aire en la ampolla rectal, no se evidencia elementos radio-opacos compatibles con teratoma, ni defectos de repleción en estómago.

La distensión abdominal disminuyó posteriormente a la estimulación rectal (fue repetida esta maniobra diariamente con resolución de su problema

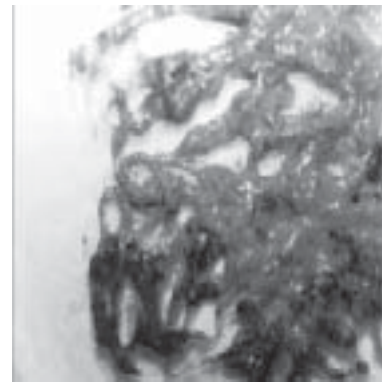


Figura 1. Heces con cabello y meconio.



Figura 2. Heces transicionales con escaso cabello.



Figura 3. Radiología simple de abdomen. A-P: niveles hidroaéreos, sin aire en ampolla rectal, no existen defectos de repleción en estómago.

de suboclusión), lo cual permitió inicio de alimentación por vía oral a partir del 7° día de vida. Es evaluado por el Servicio de Genética de nuestra institución a los 20 días, quienes plantean como diagnósticos: genodermatosis, alopecia con vello corporal presente, sin displasia ungueal y cierto grado de ictiosis.

Diagnóstico presuntivo: atriquia congénita, hipotricosis simple y displasia ectodérmica. Se practicó ecosonograma cerebral y abdominal a los 15 días: la cerebral: ventrículos ecogénicos, pero de tamaño normal; epidídimos ecogénicos (isquemia subependimaria bilateral) y ausencia de microcalcificaciones; abdominal: riñones de forma y situación normal, hígado aumentado de tamaño, pero sin dilatación de vías biliares. Presentó simultáneamente colestasis intrahepática y recibió tratamiento con ácido ursodesoxicólico a 30 mg x kg x día, por 4 semanas y vitaminas liposolubles. Egresó a los 24 días en buenas condiciones generales, con proteína C en 0,9 mg/dL, cultivos negativos, y con 2 200 g de peso. Es evaluada por el Servicio de Dermatología, Hospital "Carlos Arvelo" a los 40 días, donde sugieren el diagnóstico de atriquia congénita.

DISCUSIÓN

La referencia más antigua, al bezoar, que se tiene conocimiento es en el siglo XII a.C, realizada por el

médico hindú Sushruta, citado por Díaz Bolaños y col. (1), pero fue Baaudemant, citado por Jalundwala y Shah (2) quien lo describe en 1779 como tricobezoar o pelota de pelo. En ocasiones, la ingestión de sustancias no digeribles, pueden formar cuerpos extraños en el estómago; sin embargo, las obstrucciones intestinales y perforaciones son infrecuentes (3,4).

Alopecia se interpreta como la falta de pelo. La ausencia total o parcial de cabello al nacer puede surgir como un defecto aislado o en asociación con otras anomalías, encuadradas en síndromes (5). Hay diversas clasificaciones como cicatrizal y no cicatrizal o congénitas y adquiridas; entre las congénitas, pueden ser provocadas por a) aplasia del folículo piloso o b) por destrucción de éste. Las primeras, se caracterizan por pérdida congénita de los pelos como consecuencia de la aplasia de los folículos, puede ser total, regional o parcial, porque en ocasiones no está circunscrita al cuero cabelludo sino que se acompañan con displasias ungueales, sudoríparas, sebáceas, esqueléticas y renales, entre ellas podemos nombrar: atriquia total, atriquia parcial o circunscrita, atriquia regional y la hipotricosis. Las segundas pueden ser: traumáticas, psicossomáticas, infecciosas, tóxicas, endocrinológicas, colagenosis, tumores o causas misceláneas (5-7).

El tricobezoar es una entidad casi con exclusividad de niños y jóvenes; el 80 % lo constituyen menores de 30 años y el grupo etario más frecuente entre 10 y 20 años; es más frecuente en el sexo femenino; y es consecuencia de ingerir cabellos arrancados (tricofagia) o la ingestión de fibras de alfombras de lana, vestidos etc. (8). Se atribuye a Quain en 1854, la primera comunicación de fitobezoar producido por restos de coco, citado por Vásquez (10) y Frago y col. (11).

Se han descrito cuatro tipos de bezoares basados en su composición: tricobezoares (compuestos de pelos del mismo paciente, muñecas, pelos de animales); el cabello ingerido queda atrapado en los pliegues de la mucosa gástrica y por insuficiente superficie de fricción necesaria para su propulsión, queda retenido; fitobezoares (compuestos de plantas o materia vegetal); lactobezoares (constituidos por leche artificial insuficientemente diluida o leche espesada); al principio se postuló por el alto contenido de caseína, pero actualmente se sabe que es multifactorial: fórmulas de alta densidad, aumento del contenido de calcio, suministro de vitaminas etc. (11-13); fármacobezoares (compuestos de medicamentos) (11).

El diagnóstico puede sospecharse, en el examen físico por una masa palpable, localizada en cualquier parte del abdomen; por la observación de las evacuaciones, como sucedió en nuestro caso, que al 3^{er} día en vista de no tener reporte de evacuaciones, se practica estimulación rectal obteniendo heces con meconio y abundantes cabellos; por los antecedentes personales; por la radiología simple de abdomen que puede mostrar un defecto de repleción por laguna cerrada; la ecografía con la observación de signos específicos como una banda ancha de ecos de gran amplitud, con sombra acústica posterior completa y, por endoscopia, que permite confirmar el diagnóstico y en muchas oportunidades su extracción (11,14); se han reportado varios métodos endoscópicos para su extracción; sin embargo, en los actuales momentos, se discute si el tratamiento es médico, endoscópico o quirúrgico. Los pequeños tricobezoares pueden ser extraídos endoscópicamente y algunos fitobezoares pueden ser eliminados por métodos enzimáticos: papaína, acetilcisteína, celulosa, metoclopramida y cisapride; si son muy grandes es necesario su extracción quirúrgica (15,16).

En nuestra paciente por lo encontrado al examen físico con las áreas de alopecia en ambas regiones parietales y lo evidenciado a la estimulación rectal nos permitieron hacer el diagnóstico; el tratamiento fue sintomático con antibióticoterapia, penicilina cristalina por un VDRL reactivo (128 diluciones) planteándose el diagnóstico de una treponemosis + atriquia congénita. En la treponemosis se presenta como una alopecia apollinada, que forma parte de un secundarismo luético, en las que es posible observar ausencia de pelo en diferentes regiones del cuero cabelludo, dejando zonas claras o alopécicas, con más frecuencia en la región occipital (5-7); el diagnóstico diferencial debe hacerse con la alopecia areata y la tricotilmanía, pero éstas se presentan después del nacimiento y sí está descrito su asociación con tricobezoar; sin embargo, en la atriquia congénita, que es una rara enfermedad del desarrollo del cabello, puede haber una alopecia completa en los primeros meses de vida; las restantes localizaciones pilosas pueden también estar afectadas, aunque pueden existir cejas y pestañas en el momento del nacimiento. No existen otras alteraciones ectodérmicas, y la supervivencia reportada es normal. En referencias nacionales, encontramos a Díaz Bolaños y col. (1) quienes reportaron un caso de tricobezoar gástrico en una joven de 19 años, diagnosticado después del parto en la Maternidad "Concepción Palacios" y se trató quirúrgicamente.

Briceño y col. (17), describen dos casos, uno de un hombre de 60 años, con una masa dolorosa y palpable en fosa ilíaca izquierda, en que se confirma el diagnóstico por radiología y colon por enema; es intervenido quirúrgicamente, con evolución buena; y otro, de una niña de 10 años que es atendida de emergencia, por emesis de contenido alimentario y dolor abdominal de dos días de evolución; al examen físico masa palpable en epigastrio; se diagnostica tricobezoar gástrico, y otro, en la región íleo-cólica, (es intervenida en dos oportunidades), con evolución quirúrgica satisfactoria.

Otros autores venezolanos (18-22), reportan casos de tricobezoares y fitobezoares, producidos por tricotilmanía o ingestión de plantas respectivamente, diagnosticados por radiología simple y con contraste; todos ellos fueron tratados quirúrgicamente. En nuestro caso la caída del cabello ocurrió en forma antenatal similar a lo reportado por Proenca y col. (9).

Agradecimientos

Al Dr. Oscar Agüero, por su valiosa ayuda en recolección de referencias y su paciencia en la revisión del manuscrito.

REFERENCIAS

1. Díaz Bolaños J, Manrique PJ, Ballenilla E, Torres P. Tricobezoar. Reporte de un caso. *Gac Méd Caracas*. 1981;89:167-178.
2. Jalundwala JM, Shah SN. Trichobezoar in Yeyunun. *Indian J Surg*. 1963;25:463-466.
3. Florentino J, Oneto A, Saigueiro F, Cassella R. Tricobezoares, una rara entidad con implicaciones quirúrgicas. 2003; Disponible en: <http://www.paideianet.com.ar/trico.htm>.
4. Gans SL, Austin E. Cuerpos extraños. En: Holder TM, Ashcraft KW, editores. *Cirugía pediátrica*. México: Ed. Interamericana; 1984.p.131-134.
5. Rondón A. Alopecias y otras afecciones del pelo. Disponible en: <http://www.reinaldogodoyeditor.com/subpaginas/alopecias.htm> (Email: dermatl@canteve.net)
6. El médico interactivo *Diario Electrónico de la sanidad* (medynet.com/elmédico) 2003;892:127.
7. Rondón A. *Temas dermatológicos*. Caracas: Refolit; 1979.
8. Benson CD, Lloyd J. Cuerpos extraños en el tubo digestivo. En: Benson CD, Nustard W, Ravich MM, editores. *Cirugía infantil*. Barcelona: Ed Salvat; 1967.p.773-775.
9. Proenca E, Carvalho C, Ferreira P, Rocha H, Rosario C.

TRICOBEOZAR CONGÉNITO

- Suboclusión intestinal por tricobezoar congénito. *An Pediatr.* 2003;58(2):192-193.
10. Vázquez A. Alopecia y tumoración epigástrica. *Rev Cub Pediatr.* 1974;46(6):689-885.
 11. Fragoso T, Luaces E, Díaz T, Bezoares. *Rev Cub Pediatr.* 2002;74(1):77-82.
 12. Eremberg A, Shaw RD, Youselfzader D. Lactobezoar in the low birth weight infant. *Pediatr.* 1997;63:642-646.
 13. Kashyab S. Lactobezoar risk. *Pediatr.* 1998;81:177-179.
 14. Mc Craten S, Jogward R, Silver T. Gastric trichobezoar Sonographic findings. *Radiol.* 1986;161:123-124.
 15. Kaplan LJ, Emami ER, Santora TA, Trooskin SZ. Gastric Bezoars following penetrating abdominal injury. Diagnosis and endoscopic therapy. *Surg Endoscopy.* 1996;10(1):62-64.
 16. Wang YG, Seitz U, Soegendra N, Qiao XA. Endoscopic management of huge bezoars. *Endoscopy.* 1998;30(4):371-374.
 17. Briceño L, Cebrián J, Dellán N, Blanch R. Obstrucción intestinal baja por tricobezoar. *Centro Méd.* 1989;35:47-49.
 18. Partidas A. Tricobezoar (informe de un caso). *Trib Méd.* 1966;4(1):157.
 19. Plessman A. Fitobezoar. *Rev Cient.* 1960;8:16-20.
 20. Durán A. Un caso de tricobezoar. *El Méd Rural.* 1959;2:23-28.
 21. Plessman A. Fitobezoar. *Rev Cient Col Méd. Edo Guárico.* 1958;2:37-40.
 22. Romero FI. Gastrostomía por tricobezoar que llenaba todo el estómago y el bulbo pilórico. *Rev Policlín Valencia.* 1946;5(17):11-16.

La SOGV informa que la siguiente obra se encuentra disponible en nuestra biblioteca a la orden para su consulta

Atlas Color de Citología e Histología. Kuhnel.

AUTOR:

WOLFGANG KÜHNEL: Profesor del Instituto de Anatomía Universität zu Lübeck, Lübeck, Alemania.

Sobre la obra

El Atlas Color de Citología e Histología de Kuhnel, con una trayectoria de más de 50 años y traducido a 8 idiomas ha demostrado ser un clásico de la especialidad. Esta nueva edición, corregida y aumentada, cumple con el objetivo original de poner en manos de los estudiantes un atlas práctico y útil que permita comprender las estructuras histológicas y microanatómicas elementales del organismo, complete las clases teóricas y sea de ayuda orientadora, sobre todo en las clases prácticas con el microscopio. Su aspecto más destacado:

- Contiene 682 ilustraciones de excelente calidad, de las técnicas histológicas más avanzadas y de microscopía electrónica.
- Los textos muy breves fueron perfeccionados, aumentados y puestos al día a la luz de los conocimientos actuales.
- Se han mejorado la presentación gráfica: los capítulos están señalados por indicadores en color y se han agregado en el texto los números correspondientes a las referencias en las figuras, lo que facilita la rápida comprensión e integración entre el texto y la imagen.
- Incluye un apéndice final con 16 cuadros que permiten comprobar, por comparación con las ilustraciones, si se ha aprendido a ver lo esencial.

Un tomo 536 páginas. Encuadernación: Rústica. Formato: 12,5 x 19. Edición: 2005. ISBN: 84-7903-835-7.