

Tricotilomanía, tricobezoar de repetición y síndrome de Rapunzel. Informe de un caso y revisión de la literatura

Bulmaro Morales-Fuentes,* Ulises Camacho-Maya,* Fanny Leslie Coll-Clemente,* Juan Carlos Vázquez-Minero**

Resumen

Introducción: Un bezoar es un conglomerado de material extraño en el tracto intestinal. El tricobezoar (acumulación de cabello en la cámara gástrica) y el síndrome de Rapunzel (acumulación en el intestino delgado) suelen aparecer en niños y mujeres adolescentes con antecedente de tricotilomanía y tricofagia.

Caso clínico: Mujer de 22 años de edad con dolor abdominal intermitente, plenitud gástrica, náuseas, vómito ocasional y pérdida ponderal de 10 meses de evolución. Antecedentes de tricotilomanía, tricofagia y gastrotomía a los 16 años. Los exámenes de laboratorio revelaron anemia microcítica hipocrómica y el ultrasonido mostró una sombra sónica posterior en la cámara gástrica. Por gastrotomía se extrajo un conglomerado de cabello que ocupaba el estómago y parte del intestino delgado.

Conclusiones: La tricotilomanía y tricofagia son más comunes en las mujeres menores de 30 años. La sensación que experimentaba la paciente al deglutar los cabellos provocaba la ingesta. La recopilación de datos puede proporcionar información acerca de los determinantes que influyen en la aparición de la enfermedad.

Palabras clave: Tricotilomanía, tricobezoar, síndrome de Rapunzel.

Abstract

Background: Bezoar is a conglomeration of foreign material in the intestinal tract. Trichobezoar (accumulation of hair in the gastric chamber, secondary to impulsive pulling and intake) and Rapunzel syndrome (accumulation of hair in the small intestine) usually occur in children and adolescents with trichotillomania (TTM) and trichophagia history.

Clinical case: We present the case of a 22-year-old female who arrived for consultation. The patient had a 10-month history of intermittent abdominal pain, gastric fullness, nausea, occasional vomiting and weight loss. In addition, she had a history of TTM, trichophagia and previous gastrotomy at 16 years of age. Laboratory tests revealed hypochromic microcytic anemia. Ultrasonographic study demonstrated intense sonic shadowing posterior to the gastric area. After performing gastrotomy, the specimen was extracted and consisted of hair that occupied the entire length of the gastric chamber and part of the small intestine.

Conclusions: TTM is characterized by recurrent and impulsive pulling of one's hair for pleasure, gratification, or relief of tension. Children and women <30 years of age are the groups who most frequently suffer from this type of disorder. Hair intake sensation was a cause for presentation of the disease. Data recollection in our environment may provide information for the determination of new information regarding the presence of this condition.

Key words: Trichotillomania, trichobezoar, Rapunzel syndrome.

* Servicio de Cirugía, Hospital Rural Oportunidades 2, Instituto Mexicano del Seguro Social, Motozintla, Chiapas.

** Servicio de Cirugía, Centro de Trauma Cruz Roja Mexicana Polanco, México, D. F.

Correspondencia:

Bulmaro Morales-Fuentes.

Las Flores 13,

Col. Tercera Sección, 70117 El Espinal, Oaxaca, México.

Tel.: (971) 713 4650.

E-mail: bmfuentes_45@yahoo.com.mx

Recibido para publicación: 01-07-2009

Aceptado para publicación: 03-12-2009

Introducción

Un bezoar es un conglomerado de comida o material extraño en el tracto intestinal y puede ser clasificado de acuerdo con su constituyente primario: cabello (*tricobezoar*), plantas (*fitobezoar*), etcétera, y puede incluir varias categorías.¹

Por su parte, la tricotilomanía es la acción repetitiva de arrancarse el cabello para satisfacer un placer o disminuir la tensión. Su base patológica engloba aspectos psicológicos.

El tricobezoar es la acumulación de cabello en la cámara gástrica tras el acto frecuente de ingerirlo. El término nace de la combinación de dos palabras: *trich* (cabello en griego) y *bezoar* (antídoto en árabe o persa).²

El síndrome de Rapunzel es la extensión de cabello hacia el intestino delgado secundaria a tricobezoar. Suele ocurrir en niños y mujeres adolescentes con antecedentes de tricotilomanía, tricofagia, dismotilidad gástrica y generalmente tiene una base de disfunción psíquica del tipo de desórdenes paranoides.³

Caso clínico

Mujer de 22 años de edad, quien acudió al hospital por tumor abdominal y cuadro de 10 meses de evolución: dolor abdominal intermitente, plenitud gástrica posprandial temprana, náuseas, vómito ocasional, pérdida de peso corporal de 6 kg. Los antecedentes de la paciente revelaron tricotilomanía, tricofagia y gastrotomía previa a los 16 años, secundaria a tricobezoar. Al interrogatorio indirecto, los familiares mencionaron conocer los hábitos de la paciente y haberla observado arrancarse los cabellos e ingerirlos en múltiples ocasiones.

A la exploración física del abdomen: cicatriz de la cirugía previa localizada en la línea media, supraumbilical, abarcando región epigástrica y parte del mesogastrio. A la palpación, tumor indurado en el epigastrio y mesogastrio, de 18 × 20 cm aproximadamente, doloroso a la palpación profunda, móvil, no pulsátil. En la percusión, tumor mate; el resto del abdomen timpánico. Y a la auscultación, peristalsis aumentada.

El ultrasonido abdominal indicó estómago distendido con medidas aproximadas de 10 × 15 cm, con sombra sónica posterior debido a un tumor que ocupaba toda la cámara gástrica correspondiente a probable bezoar (figura 1).

Se decidió practicar laparotomía exploradora con la que se observó el estómago distendido por un tumor intragástrico que ocupaba toda la longitud del estómago; por gastrotomía de 10 cm de longitud se identificó un conglomerado de cabellos, extraído en su totalidad (figuras 2 y 3); el espécimen presentaba medidas de 25 × 13 × 10 cm (figura 4), con peso de 1300 g, cuya prolongación hacia intestino delgado fue de 23 cm.

En el posoperatorio, la paciente evolucionó de forma adecuada; fue egresada sin complicaciones con cita a psicología y psiquiatría.

Discusión

El tricobezoar es el tipo más frecuente de bezoar en pacientes menores de 30 años;⁴ el primer caso fue informado



Figura 1. Cortes de ultrasonografía en región epigástrica que muestran zona hiperecoica y marcada sombra acústica posterior.

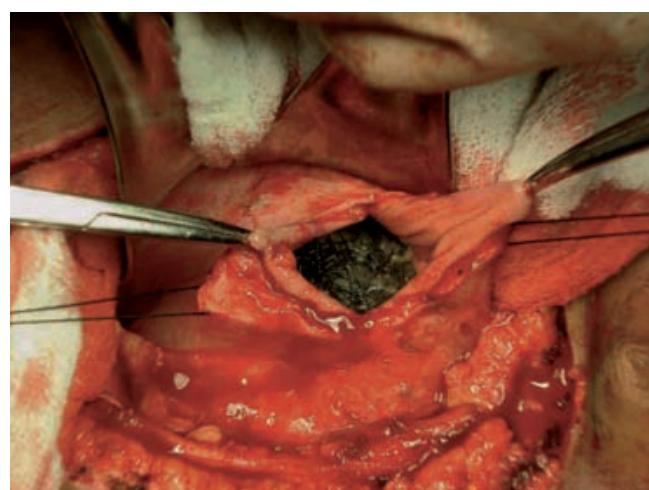


Figura 2. Gastrotomía donde se observa el bezoar.

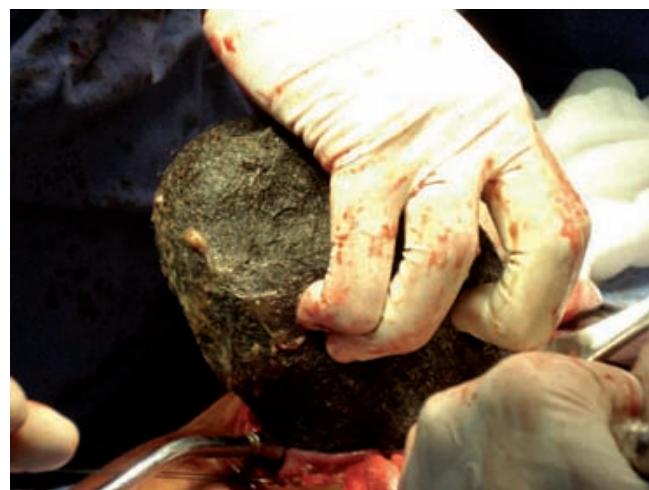


Figura 3. Extracción del bezoar.



Figura 4. Tricobezoar extraído completamente.

por Baudomant en 1779,⁵ aunque la extracción quirúrgica se realizó por primera vez en 1883 (Schonbern, 1883).^{6,7} Cuando el tricobezoar se extiende del estómago hacia el duodeno, el intestino delgado proximal o colon ascendente se denomina síndrome de Rapunzel;^{2,8,9} el primer caso fue publicado en 1968 por Vaughn y se caracterizó por síntomas inespecíficos como dolor abdominal, vómito y anorexia.¹⁰

En 1938, De Bakey y Ochsner informaron 311 casos de bezoar; observaron que la ocurrencia de tricobezoar en mujeres fue de 90% y, de éstas, 80% tenía menos de 30 años de edad.¹¹

En general, las manifestaciones clínicas dependen de la localización del bezoar. El principal síntoma asociado es el dolor abdominal, pero también se presentan anorexia, náuseas, vómito, saciedad temprana y tumoración palpable en la exploración. En 2005, Erzurumlu y colaboradores informaron 34 casos de bezoar, 15 localizados en el estómago (44.11%) y ocho en íleon (25.32%). Además, identificaron la cirugía gástrica previa como el factor predisponente más asociado (55.8%), y de ésta la vagotomía troncular más piloroplastia y la gastrectomía subtotal distal o antrectomía como los procedimientos más relacionados (26.47%).^{2,12,13}

Las principales complicaciones de un tricobezoar son la ulceración o perforación digestiva en 8%, así como la oclusión o invaginación intestinal.^{11,14} Además, se asocia a diarrea y deficiencia de vitamina B₁₂, secundarias a sobrecrecimiento bacteriano por la colonización del bezoar. La recurrencia del tricobezoar puede suceder por hipomotilidad gástrica, vagotomía o neuropatía diabética, y en la mayoría de las ocasiones ocurre en niños y mujeres jóvenes.^{9,15-17}

Con la tomografía computarizada puede apreciarse mejor su tamaño, configuración y ubicación y realizarse el diagnóstico diferencial con una neoplasia. La característica de un tricobezoar en la tomografía es una imagen no homo-

génea que no ensancha el lumen del estómago y el intestino pero el medio de contraste circunscribe la tumoración.¹⁸

La tricotilomanía se caracteriza por un comportamiento repetitivo de arrancarse el propio cabello por simple placer, gratificación o liberación de la tensión, que provoca perceptible pérdida de pelo. Se han relacionado como determinantes de su causa diferentes percepciones personales como las características del cabello (el color [gris], la forma [rizada] y la textura [tosca]); la cognición que se tiene sobre el pelo (mis cejas deben ser simétricas, el cabello gris es malo y es necesario eliminarlo); las experiencias emocionales negativas (ansiedad, tensión, soledad, fatiga, culpa, frustración); y —últimamente— el estudio, la lectura, ver la televisión, hablar por teléfono y conducir.¹⁹

El Manual Diagnóstico y Estadístico de Desórdenes Mentales de la *American Psychiatric Association* (DSM-IV), la clasifica como un desorden de control de impulso; sin embargo, esto ha sido debatido pudiéndose considerar como un trastorno de espectro obsesivo-compulsivo. Además, la alta incidencia del desorden obsesivo-compulsivo en pacientes con tricotilomanía y las similitudes fenomenológicas entre el arrancamiento de cabello y la compulsión, han sugerido dicha clasificación.^{19,20} Los criterios para hacer el diagnóstico de la patología se muestran en el cuadro I.²¹

En la población estadounidense, la tricotilomanía tiene un rango de incidencia de 1 a 4%,²² pero en mujeres adolescentes existe controversia respecto a los criterios del DSM-IV, ya que se observa una incidencia de 0.6% tomando en cuenta los criterios B (tensión antes del arrancamiento de cabello) y C (disminución de la tensión posterior al arrancamiento) y de 3.4% al no incluir dichos criterios.²³ En nuestro país no existen registros al respecto.

El síndrome de Rapunzel es una rara forma de tricobezoar, cuyos criterios de definición varían. Algunos autores lo han descrito como un tricobezoar con una cola que se

Cuadro I. Criterios diagnósticos para tricotilomanía

- Arrancamiento repetitivo de cabello que resulta en pérdida significativa del mismo.
- Incremento del nivel de tensión antes de arrancarse el cabello o durante el intento de evitar arrancárselo.
- Sensación de relajación, placer o gratificación durante el arrancamiento del cabello.
- El trastorno no es mejor explicado por otro desorden mental y no se debe a otra condición médica general.
- El trastorno causa estrés clínicamente significativo o deterioro en áreas de trabajo, áreas sociales u otras áreas de función importante.

Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders. Text Revision (DSM-IV-TR). American Psychiatric Association; 2000.

extiende hacia la unión ileocecal; otros informan que es un simple tricobezoar con una larga cola que puede extenderse al yeyuno o íleon; otros más, como un tricobezoar de cualquier tamaño que se manifiesta como obstrucción intestinal, o como un tricobezoar gástrico que se extiende más allá del píloro dentro del intestino. Hasta 2007, 27 casos han sido informados en la literatura, 26 en mujeres y uno en hombres. Las manifestaciones más frecuentes son dolor abdominal, náuseas, vómito y obstrucción intestinal. Las complicaciones más frecuentes son ictericia, pancreatitis aguda secundaria a obstrucción de la ampolla de Vater y peritonitis. El tratamiento se centra en el uso de sustancias químicas o laparotomía asociada a enterotomía.^{8,24-26}

En general, el tricobezoar y el síndrome de Rapunzel son entidades derivadas de un trastorno con bases psicológicas. Se presentan a menudo en paciente con antecedente de tricotilomanía y tricofagia; la mayoría de las veces en mujeres jóvenes y niños. Su diagnóstico definitivo se realiza por tomografía computarizada, y el tratamiento puede requerir laparotomía asociada a enterotomía.^{15-17,27}

Conclusiones

La paciente referida reunía las constantes de recurrencia y la sintomatología se relacionó con los datos descritos, pero sin complicaciones de importancia. No se halló ningún determinante específico que provocara la compulsión, sin embargo, durante el interrogatorio la paciente refirió el placer de sentir cómo los cabellos “raspaban” su garganta durante la ingesta, al parecer la causa principal que motivaba el acto.

Actualmente en México no existen datos fiables sobre la frecuencia de la enfermedad y su recurrencia. Consideramos importante recopilar datos en nuestro medio para entender el comportamiento de estos trastornos y analizar los factores que pueden desencadenarlos.

Referencias

- O'Sullivan MJ, McGreal G, Walsh JG, Redmon HP. Trichobezoar. JRC Soc Med 2001;94:68-70.
- Rabie ME, Arishi AR, Khan A, Ageely H, Seif El-Nasr GA, Fagihi M. Rapunzel syndrome: the unsuspected culprit. World J Gastroenterol 2008;14:1141-1143.
- Pérez E, Santana JR, García G, Mesa J, Hernández JR, Betancort N, et al. Perforación gástrica en adulto por tricobezoar (síndrome de Rapunzel). Cir Esp 2005;78:268-270.
- Andrus CH, Ponsky JL. Bezoars: classification, pathophysiology and treatment. Am J Gastroenterol 1988;83:476-478.
- Filipi CJ, Perdikis G, Hinder RA, DeMeester TR, Fitzgibbons RJ, Peters J. An intraluminal approach to the management of gastric bezoars. Surg Endosc 1995;9:831-833.
- Corona CJ, Sánchez LR, Gracida MN, Palomeque LA, Vega ChG. Tricobezoar como causa de oclusión intestinal alta. Informe de un caso y revisión de la literatura. Gac Med Mex 2005;14:417-419.
- 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;76:83-86.
- Zent RM, Cothren CC, Moore EE. Gastric trichobezoar and Rapunzel syndrome. J Am Coll Surg 2004;23:990-998
- Quraishi AH, Kamath BS. Rapunzel syndrome. Gastrointest Endosc 2005;64:611-615.
- Vaughn ED, Sawyers JL, Scott HW. The Rapunzel syndrome: an unusual complication of intestinal bezoar. Surgery 1968;63:339-343.
- DeBakey M, Oschner A. Bezoars and concretions: comprehensive review of literature with analysis of 303 collected cases and presentations of 8 additional cases. Surgery 1939;5:132-160.
- Friedlander FC, Kushlick P. Trichobezoar. Arch Dis Child 1954;2:556-560.
- Erzurumlu K, Malazgirt Z, Bektas A, Dervisoglu A, Polat C, Senyurek G, et al. Gastrointestinal bezoars: a retrospective analysis of 34 cases. World J Gastroenterol 2005;11:1813-1817.
- Ben Cheikh A, Gorincour G, Dugougeat-Pilleul F, Dupuis S, Basset T, Pracros JP. Trichobézoard gastrique révélé par une anémie chez une adolescente: association échographie-imagerie par résonance magnétique (IRM). J Radiol 2004;85:411-413.
- Kappadia SR, Duttaroy DD, Ghodgaonkar PS, Maru SK, Yeluri SV, Karsnth S. Recurrent trichobezoar in a woman. Indian J Gastroenterol 2003;22:35-36.
- Kumar V, Khatri AK, Pandey M, Shukla VK, Gangopadhyay AN. Recurrent trichobezoar: first reported case. Indian J Pediatr 1996;63:257-258.
- Ratnagiri R, Smile SR, Sistla SC. Recurrent gastric trichobezoar. Indian J Gastroenterol 2002;21:229-230.
- Palanivelu C, Rangarajan M, Senthilkumar R, Madankumar MV. Trichobezoars in the stomach and ileum and their laparoscopy-assisted removal: a bizarre case. Singapore Med J 2007;48:37-39.
- Woods WD, Flessner C, Franklin EM, Wetterneck TC, Walther RM, Anderson RE, et al. Understanding and treating trichotillomania: what we know and what we don't know. Psychiatr Clin North Am 2006;29:487-501.
- Bouwer C, Stein DJ. Trichobezoars in trichotillomania: case report and literature overview. Psychosomatic Med 1998;60:658-660.
- American Psychiatric Association. Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders. 4th ed. Text revision (DSM-IV-TR). Washington, DC: American Psychiatric Association; 2000. pp. 674-677.
- Diefenbach GJ, Reitman D, Williamson DA. Trichotillomania: a challenge to research and practice. Clin Psychol Rev 2000;20:289-309.
- Christenson GA, Pyle RL, Mitchell JE. Estimated lifetime prevalence of trichotillomania in college students. J Clin Psychol 1991;52:415-417.
- Naik S, Gupta V, Naik S, Rangole A, Chaudhary KA, Jain P, et al. Rapunzel syndrome reviewed and redefined. Dig Surg 2007;24:157-161.
- Memon SA, Mandhan P, Qureshi JN, Shairani AJ. Recurrent Rapunzel syndrome: a case report. Med Sci Monit 2003;9:92-94.
- Deevaguntla CR, Prabhakar B, Prasad GR. Rapunzel syndrome: a case report. J Indian Assoc Pediatr Surg 2004;9:33-34.
- Lysak ZD, Finogenov luV, Isaev luV. Recurrent trichobezoar of the gastrointestinal tract in a child. Vestn Khir Im I I Grek 1988;140:93-94.