

## El largo camino de la tricotilomania al síndrome de Rapunzel

### The Long Road from Trichotillomania to Rapunzel Syndrome

Noslen Martínez Valenzuela<sup>1\*</sup> <https://orcid.org/0000-0003-4069-0694>

Shaneeza Hossein<sup>1</sup> <https://orcid.org/0000-0002-4540-1305>

Devendra Hira<sup>1</sup> <https://orcid.org/0000-0002-2259-4677>

Celia Catalina Salas Izquierdo<sup>1</sup> <https://orcid.org/0000-0002-0193-2913>

<sup>1</sup>Universidad de Ciencias Médicas de La Habana, Hospital Universitario “General Calixto García”. La Habana, Cuba.

\*Autor para la correspondencia: [mnoslen38@gmail.com](mailto:mnoslen38@gmail.com)

#### RESUMEN

**Introducción:** La tricotilomania, la tricofagia y el tricobezoar son afecciones entrelazadas e interconectadas. Estas deben tenerse en cuenta especialmente en féminas jóvenes que a menudo tienen una enfermedad psiquiátrica o trastorno social subyacente y es posible que la historia sea difícil de obtener.

**Objetivo:** Presentar un caso portador de tricobezoar gástrico, por su baja incidencia en nuestro medio y a nivel mundial.

**Caso clínico:** Paciente femenina de 12 años de edad, con antecedentes de retraso psicomotor, sin seguimiento o tratamiento previo. Acudió a consulta traída por su madre que aduce aumento de volumen en hemiabdomen superior de 5 años de evolución con pérdida de peso insidiosa. Los estudios radiológicos revelaron un tricobezoar gástrico que se corrobora, asociado a un síndrome de Rapunzel, en la laparotomía exploratoria. La paciente evolucionó satisfactoriamente y es seguida por grupo multidisciplinario.

**Conclusiones:** Los bezoares gástricos son entidades poco frecuentes. Para el diagnóstico es necesario un alto índice de sospecha de conjunto con estudios radiográficos y/o endoscópicos. El tratamiento estará determinado por el tipo de

bezoar, tamaño y consistencia. La opción quirúrgica es la más usada, con el consecuente seguimiento interdisciplinario para evitar recurrencias.

**Palabras clave:** tricotilomania; tricofagia; tricobezoar gástrico; síndrome de Rapunzel.

## ABSTRACT

**Introduction:** Trichotillomania, trichophagia and trichobezoar are intertwined and interconnected conditions. These should be considered, especially in young women who often have an underlying psychiatric illness or social disorder and possibly a history difficult to get.

**Objective:** To report a case of gastric trichobezoar due to its low incidence in our environment and worldwide.

**Clinical case report:** We report the case of a 12-year-old female patient with a history of psychomotor retardation, with no prior follow-up or treatment, who came to consult with her mother, complaining of increased volume in the upper abdomen, of 5 years of evolution with malignant weight loss. Radiological studies reveal a gastric trichobezoar that is corroborated, associated with Rapunzel syndrome, in the exploratory laparotomy. The patient evolved satisfactorily and a multidisciplinary group assisted her.

**Conclusions:** Gastric bezoars are rare entities. Diagnosis requires high level of suspicion together with radiographic and/or endoscopic studies. The treatment will be determined by the type of bezoar, size and consistency. The surgical option is the most used, requiring interdisciplinary follow-up to avoid recurrences.

**Keywords:** trichotillomania; trichophagia; gastric trichobezoar; Rapunzel syndrome.

Recibido: 10/07/2021

Aceptado: 10/08/2021

## Introducción

El Manual Diagnóstico y Estadístico de los Trastornos Mentales (DSM, por sus siglas en inglés), es el sistema de clasificación de los trastornos mentales más utilizado a nivel internacional. En él se describen todos los trastornos mentales que conocemos actualmente y sirve como guía para ayudar a los profesionales de la salud mental a entender la psicopatología de manera uniforme y homogeneizar los diagnósticos psicológicos y psiquiátricos. Desarrollado por la [Asociación Estadounidense de Psiquiatría \(APA, por sus siglas en inglés\)](#), su primera edición fue publicada en el año 1952 (DSM-1).

La tricotilomanía o TTM (del griego *tríx*, *trichos*: cabello, *tíl-lō*: depilar y *μavía*: manía o impulso) se incluye en los trastornos obsesivos compulsivos y trastornos relacionados en la quinta edición del DSM (DSM-5) (312.39 F 63.3).<sup>(1)</sup> Es definida, entre otras acepciones, por: A- Arrancarse el pelo de forma recurrente, lo que da lugar a su pérdida; B- Intentos repetidos de disminuir o dejar de arrancar el pelo y C- Arrancarse el pelo causa malestar significativo o deterioro en lo social, laboral u otras áreas importantes del funcionamiento.

Tirar del pelo fue mencionado por primera vez por Aristóteles en el siglo IV a. C. En la era moderna, el tricobezoar fue reportado por *Baudaman* en 1779 como hallazgo durante una necropsia como causa de muerte en una mujer joven, pero fue escrito por primera vez en la literatura en 1883 por *Schonborn* cuando realizó la primera laparotomía para extracción de este material. El término de tricotilomanía fue acuñado por el dermatólogo francés François Henri Hallopeau en 1889. Stelzner en 1896 fue el primero en reportar un diagnóstico preoperatorio de la entidad basado en el examen físico. Como diagnóstico psiquiátrico, solo fue aceptado después de 1987 en la DSM-3 revisada.<sup>(1,2,3)</sup>

Su incidencia se considera que oscila entre el 0,6 % y el 1,6 % de la población mundial con mayor prevalencia en el sexo femenino (90 % de los casos), con una máxima frecuencia entre 10 y 30 años. Se asocia a tricofagia (del griego *trichos*: pelos; *phagein*: comer) hasta en el 30 % de los pacientes y solo el 1 % formará un tricobezoar que requerirá la extracción quirúrgica. Se estima que uno de cada 2000 niños sufre de TTM y 5 - 20 % de tricofagia, pero pocos presentan

tricobezoares. Tiene una incidencia máxima entre los 9 y 13 años y la mayoría de pacientes presentan algún tipo de alteración neuropsiquiátrica.<sup>(4,5)</sup>

El bezoar se define como la concreción calcúlosa que suele encontrarse en las vías digestivas o urinarias de algunos mamíferos, y al que se le atribuyeron propiedades curativas.<sup>(6)</sup> Vocablo que procede del dialecto árabe andalusí *bazáhr*, proveniente a su vez del árabe clásico que floreció entre los siglos VII y IX d.C. *bā[di]zahr* y este del persa *pādzahr*, de pad (expulsar, eliminar, arrojar) -zhar (veneno).

Literalmente significa “antídoto o contraveneno” ya que, en la antigüedad, alrededor del año 1000 a.C. prevalecía en los pueblos de Oriente la idea de ciertos materiales con propiedades mágico-medicinales que eran eficaces para aliviar el envenenamiento fundamentalmente contra el arsénico. Incluso, se consideraba que tomar una porción del bezoar disuelto en agua era una especie de panacea.<sup>(6,7)</sup>

El objetivo de este trabajo fue presentar un caso portador de tricobezoar gástrico, por su baja incidencia en nuestro medio y a nivel mundial.

## Caso clínico

Paciente femenina de 12 años de edad, con antecedentes de trauma craneal de severidad desconocida a los 2 meses de nacida y de retraso en el desarrollo psicomotor no evaluado ni tratado previamente por médico alguno. Es remitida a consulta de cirugía en el Hospital Regional de *West Demerara*, República Cooperativa de Guyana, por presentar tumoración abdominal de 5 años de evolución, asociado a dolor epigástrico de moderada intensidad ocasionalmente y pérdida de peso. Al examen físico se constata una paciente delgada según índice de masa corporal, con ligero retraso cognitivo y tumor visible y palpable en hipocondrio izquierdo, no doloroso, movable y regular.

### Estudios de hematología y hemoquímica en parámetros de normalidad

Se realizó ecografía abdominal que informó una imagen ecogénica de aproximadamente 57 por 51 milímetros en hemiabdomen superior con amplia sombra acústica asociada (Fig. 1).



**Fig. 1-** Ecografía abdominal.

Se indicó estudio contrastado de tracto digestivo superior donde se evidenció un tumor que ocupaba cavidad gástrica (Fig. 2). No se realizó tomografía axial o endoscopia digestiva superior por no contar con estudios en la institución.



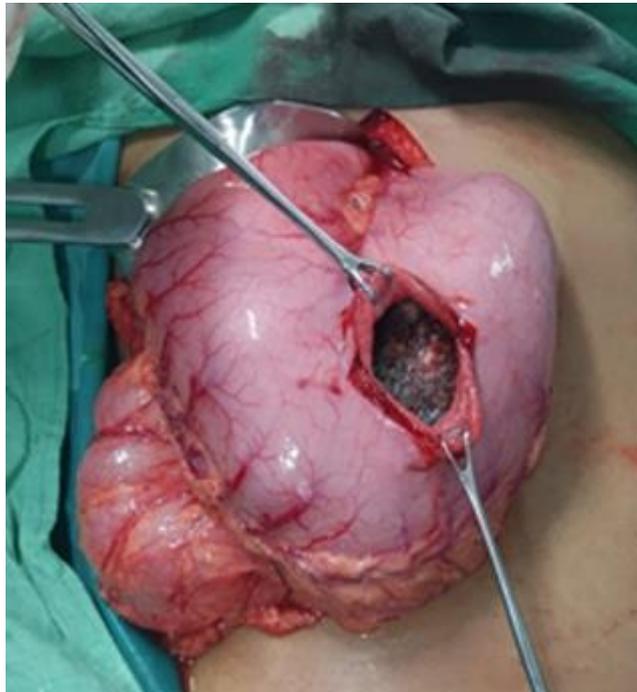
**Fig. 2-** Estudio contrastado.

Los estudios fueron compatibles con posible tricobezoar gástrico, por lo que se decidió anunciar al quirófano.

Se realizó laparotomía exploratoria por incisión media supraumbilical, a través de la cual se corroboró diagnóstico preoperatorio. Se realizó gastrotomía

anterior en cuerpo y remoción de tricobezoar gástrico con síndrome de Rapunzel asociado (Figs. 3 y 4).

Evolucionó satisfactoria en su posoperatorio con el seguimiento en consulta de cirugía y psiquiatría infanto-juvenil.



**Fig. 3-** Gastrostomía anterior.



**Fig. 4-** Tricobezoar con síndrome de Rapunzel.

## Discusión

La TTM, según el DSM-5 se clasifica como un desorden relacionado a los trastornos obsesivos-compulsivos con un trastorno motor (movimiento estereotipado). Suelen asociarse a pica, enfermedades psiquiátricas y alteraciones en el neurodesarrollo.<sup>(1)</sup>

Los bezoares, a su vez, se clasifican según su composición en 5 tipos: fitobezoares o de fibra vegetal (del griego *phyton*, planta); quimiobezoares o producidos por sustancias químicas, lactobezoares, (del latín *lacteus*, *leche*), infrecuentes y exclusivo en niños, bezoares a cuerpo extraño y tricobezoares.<sup>(8,9)</sup>

Si bien la fisiopatología del tricobezoar no se conoce completamente, ciertos mecanismos como la dismotilidad gástrica, disminución del pH gástrico y gastroparesia, entre otros, potencian la incapacidad del estómago para propulsar los cuerpos extraños. Tampoco se ha podido definir el tiempo que transcurre entre el comienzo de la tricofagia y su manifestación sintomática. El pelo ingerido llega al estómago y permanece adherido a los pliegues gástricos por fenómenos de tensión superficial, constituyéndose en el núcleo del tricobezoar, sobre el que se acumula más pelo, moco y fragmentos de múltiples alimentos, conglomerado que persistirá en el estómago al resistir la acción de los jugos gástricos.<sup>(10)</sup>

Cuando el cuerpo del tricobezoar se localiza en estómago y su cola se extiende por duodeno, se lo denomina síndrome de Rapunzel, descrito por *Vaughan* y otros en 1968. Es poco frecuente y su denominación evoca el cuento de los hermanos Grimm de 1812, en el que una joven lanzaba su larga cabellera para que su enamorado subiera a la torre donde se encontraba prisionera.<sup>(4,11)</sup>

Son, generalmente, los pediatras o cirujanos, la puerta de entrada de estos pacientes al sistema de salud y en la forma de presentación se describe la tríada clásica de masa abdominal en el 70 % de los casos, dolor abdominal en el 37 % de los pacientes y pérdida de peso en el 38 %, aspectos todos presentes en nuestra paciente. El signo más común es la evidencia a la palpación de un tumor abdominal móvil en epigastrio y cuadrante superior izquierdo (signo de *Lamerton*) asociado a hiporexia o anorexia, intolerancia a los alimentos, alteraciones del tránsito intestinal (diarrea o estreñimiento), halitosis, pérdida de peso y desnutrición.<sup>(3,12,13)</sup>

El diagnóstico diferencial de la masa en el epigastrio se realiza con el pseudoquiste pancreático, el neuroblastoma, el riñón en herradura, los tumores gástricos, la hepatomegalia y la esplenomegalia.

La sospecha de esta entidad descansa en los antecedentes y la clínica debe corroborarse a través de estudios radiológicos y endoscópicos. Los síntomas pueden sugerir una obstrucción intestinal, pero es poco probable realizar el diagnóstico con una radiografía de abdomen simple dado que los bezoares no son radiopacos, aunque pudiera verse una imagen heterogénea que simula el estómago lleno. Por ello, ha de realizarse con una radiografía contrastada del tracto digestivo superior donde se puede observar una imagen en panal de abejas, resultado del bario atrapado en el intersticio del bezoar.

La ecografía suele mostrar una imagen ecogénica con sombra acústica posterior en la región de estómago. La tomografía computarizada, con una sensibilidad cercana al 97 %, es la herramienta de diagnóstico más útil en los pacientes con bezoares porque revela la localización, el tamaño y permite hacer diagnóstico diferencial con procesos neoplásicos.<sup>(3)</sup>

La panendoscopia digestiva superior suele ser diagnóstica y se considera esencial, pues permite determinar la composición material del bezoar además de ser útil para tomar muestras y ocasionalmente puede ser terapéutica, según el tamaño del tricobezoar. El 10 % están asociados a úlcera gástrica por decúbito, provocada por la abrasión constante de la mucosa por la concreción pilosa.<sup>(3,14)</sup>

Entre las principales complicaciones de la entidad se destacan la anemia crónica, esteatorrea y enteropatía perdedora de proteínas. La extensión al intestino delgado puede ocasionar ictericia obstructiva y pancreatitis.

Las inflamaciones y erosiones de la mucosa, con hemorragias y formación de úlceras superficiales o profundas, así como las perforaciones de estas últimas pueden presentarse tanto el estómago como el intestino delgado, generalmente asociadas a la irritación mecánica que ejerce el tricobezoar.<sup>(13)</sup>

Para el correcto abordaje de los pacientes con diagnóstico de tricobezoar ha de indicarse tratamiento psicológico. La terapia cognitivo conductual (TCC), usa técnicas para la modificación de procesos cognitivos que llevan a la conducta problema. En cuanto al tratamiento farmacológico, los ISRS (inhibidores

selectivos de la recaptación de serotonina) son el grupo farmacológico con el mejor perfil de menores efectos adversos. Los más estudiados dentro de estos son la fluoxetina, seguido por la sertralina y la fluvoxamina, todos con niveles similares de efectividad y con mejores resultados en relación con otros fármacos como clomipramina u olanzapina.<sup>(10,15)</sup>

El tratamiento de los bezoares contempla 3 modalidades su tipo, tamaño y localización: el manejo médico (disolución química o enzimática), la extracción endoscópica o la extirpación quirúrgica.<sup>(5)</sup>

La terapia médica no suele ser una opción recurrente para la corrección definitiva del tricobezoar y dependerá significativamente de la ubicación, composición y volumen del bezoar. La disolución química se ha intentado con celulosa, acetilcisteína, papaína, bicarbonato de sodio y muchos otros productos.<sup>(16)</sup> En reiterados estudios, autores como *Ladas* y otros han insistido en la utilidad de bebidas carbonatadas, específicamente la Coca-Cola, con tasas de respuesta superior al 60 % en fitobezoares, no así en otros tipos.<sup>(17,18,19,20)</sup> En teoría el ácido fosfórico y ácido carbónico de esta bebida, alcanzaría un pH 2,6 que permite la digestión de fibras; además, el bicarbonato de sodio presente tendría un efecto mucolítico y las burbujas de CO<sub>2</sub> facilitarían la disolución. Los propios autores sostienen que una terapia combinada, química y endoscópica elevaría la tasa de éxito al 90 % en fitobezoares gástricos.

Mientras que los fitobezoares pueden ser tratados con métodos químicos o enzimáticos, los tricobezoares generalmente requieren manejo endoscópico o quirúrgico.

Las técnicas endoscópicas son diversas. La literatura describe la fragmentación y remoción con fórceps, el uso de asa de polipectomía, hidrogastroclisis, láser Nd YAG, litotripsia mecánica y electrohidráulica o litotripsia extracorpórea. Todas estas técnicas requieren tiempo y, en algunas ocasiones, varias sesiones para lograr la remoción completa tornándose en una eliminación tediosa y engorrosa a juicio de muchos autores, con el añadido de necesitarse endoscopios con canales amplios.<sup>(3,9,21)</sup> Por su parte, *Gorter* y otros, en una revisión retrospectiva de 108 casos de tricobezoar, evaluaron las opciones de manejo disponibles y reportó que solo el 5 % de los intentos de extracción endoscópica fueron exitosos.<sup>(21)</sup>

La resolución quirúrgica continúa siendo la alternativa más usada ante concreciones grandes y compactas. Esta puede ser laparoscópica o clásica y ha de tenerse especial consideración con el síndrome de Rapunzel, en el que pueden ser necesarias enterotomías para la completa remoción del bezoar. Cuando existen complicaciones como perforación o hemorragia, es la vía clásica la de elección, siendo la gastrotomía anterior lo más conveniente, con posterior cierre en 2 planos, con o sin parche de Graham. Cuando la entidad se encuentra asociada a una úlcera no es necesario hacer tratamiento quirúrgico de esta, ya que al retirar el bezoar mejora la lesión.<sup>(9,13,14)</sup>

Se han descrito recurrencias hasta en el 20 % de los casos,<sup>(10,14)</sup> por lo que ha de hacerse hincapié en un seguimiento multidisciplinario, fundamentalmente con las áreas de psiquiatría y psicología con el objetivo de evitarlas.

### Consideraciones finales

El tricobezoar es una afección poco común que representa un desafío diagnóstico para el médico actuante. Ha de tenerse en cuenta en el juicio diferencial de toda paciente joven con una masa epigástrica móvil. Es una entidad de fácil reconocimiento mediante tomografía axial y endoscopia, y la remoción quirúrgica, mediante una laparoscopia o laparotomía exploratoria, con o sin síndrome de *Rapunzel* demostrado, es la alternativa más recomendada. Conjuntamente con el tratamiento quirúrgico, el seguimiento psiquiátrico es esencial para prevenir su recurrencia.

### Referencias bibliográficas

1. Asociación Americana de Psiquiatría. Suplemento del Manual Diagnóstico y Estadístico de Trastornos Mentales. 5ta. ed. Washington: DC; 2018. p. 50.
2. Waas RL, Yesudian PD. Plucking, Picking, and Pulling: The Hair-Raising History of Trichotillomania. *Int J Trichology*. 2018 Nov-Dec;10(6):289-90. DOI: 10.4103/ijt.ijt\_69\_18.
3. Abril LA, Olivera MP, Garrido JR. Tricobezoar. Reporte de caso. *Rev. Fac. Med.* 2016 July;24(2):74-80. DOI: <https://doi.org/10.18359/rmed.2643>

4. Jaramillo-Borges YM. Tricotilomanía, tricofagia y el Síndrome de Rapunzel. Acta Méd. Costarric. 2007 [acceso 21/05/2021];49(1):4-5. Disponible en: [http://www.scielo.sa.cr/scielo.php?script=sci\\_arttext&pid=S0001-60022007000100001&lng=en](http://www.scielo.sa.cr/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0001-60022007000100001&lng=en)
5. Fernández-Lopeza JA, González-Valverde FM, Rodenas-Moncada J, Albarracín A. Tricofagia y tricobezoar. Cir. Esp. 2014;92(6):448-9. DOI: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ciresp.2014.01.007>
6. Real academia española. Diccionario de la lengua española. 23.<sup>a</sup> ed. Versión 23.4. 2020 [acceso 21/05/2021]. Disponible en: <https://dle.rae.es>
7. Anders V. Etimología de Bezoar. deChile.net. 2021 [acceso 21/05/2021]. Disponible en: <http://etimologias.dechile.net/?bezoar>
8. DuBose TM, Southgate WM, Hill JG. Lactobezoars: a patient series and literature review. Clin Pediatr (Phila). 2001;40(11):603-6.
9. Sánchez G, Bohle J, Cárcamo C, Massri D. Tricobezoar Gástrico. Caso clínico y revisión de la literatura. Cuad. Cir. 2006;20:48-51. DOI: 10.4206/cuad.cir.2006.v20n1-08
10. Puleo C, Menéndez C. Tricobezoar en infancia y adolescencia: Una patología en aumento. Revisión de casos clínicos. 2019 [acceso 19/05/2021];26(3):321-25. Disponible en: <http://www.medicinainfantil.org.ar>
11. ED Vaughan Jr, JL Sawyers, HW Scott Jr. El síndrome de Rapunzel. Una complicación inusual del bezoar intestinal. Surgery. 1968;63(2):339-43.
12. Lamerton AJ. Trichobezoar: two case reports--a new physical sign. Am J Gastroenterol. 1984;79(5):354-6.
13. Guzmán Rojas P, Bravo Paredes E, Pichilingue Reto C. Síndrome de Rapunzel como causa de obstrucción y perforación intestinal. Acta Gastroenterol Latinoam. 2016;46:114-7.
14. Cuda L, Díaz Vélez JP, Bassi D, Mimura H. Tricobezoar gástrico con úlcera gástrica asociada. Reporte de un caso con su contexto psiquiátrico. 2020 [acceso 24/05/2021]. Disponible en: <https://www.intramed.net/contenidover.asp?contenido=97007&pagina=1>
15. Torales J, Ruiz C, Chávez E, Villalba J, Riego V, Rodríguez H, *et al.* Psicofármacos en Tricotilomanía Pediátrica: ¿cuándo y cuáles? Primeras Jornadas

Educacionales de la Asociación Mundial de Psiquiatría. Paraguay. 2014. DOI:10.13140/RG.2.1.1046.2969

16. Sosa Martín JG, Martínez Valenzuela N, Ernand Rizo S. Oclusión intestinal por fitobezoar en una paciente con enfermedad diverticular del colon. Rev Cubana de Cirugía. 2016 [acceso 26/05/2021];55(3):254-8 Disponible en: [http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci\\_isoref&pid=S0034-74932016000300007&lng=es&tlng=es](http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_isoref&pid=S0034-74932016000300007&lng=es&tlng=es)

17. Espinoza González R. Bezoares gastrointestinales: mitos y realidades. Rev Med Chile. 2016;144:1073-7.

18. Ladas SD, Triantafyllou K, Tzathas C, Tassios P, Rokkas T, Raptis SA, *et al.* Gastric phytobezoars may be treated by nasogastric Coca-Cola lavage. Eur J Gastroenterol Hepatol. 2002;14(7):801-3. DOI: <https://doi.org/10.1097/00042737-200207000-00017>

19. Ladas SD, Kamberoglou D, Karamanolis G, Vlachogiannakos J, Zouboulis-Vafiadis I. Systematic review: Coca-Cola can effectively dissolve gastric phytobezoars as a first-line treatment. Aliment Pharmacol Ther. 2013 Jan;37(2):169-73. DOI: <https://doi.org/10.1111/apt.12141>

20. Christian von Mühlenbrock P, Tomás San Martín C, Gabriel Mezzano P. Bezoar gástrico, una aproximación al manejo médico. Rev Gastroenterología Latinoamericana. 2020;31(1):49-52. DOI: <https://doi.org/10.46613/gastrolat202001-08>

21. RR Gorter, CMF Kneepkens, ECJL Mattens, DC Aronson, HA Heij. Manejo del tricobezoar: Reporte de un caso y revisión de la literatura. Cirugía Pediátrica Internacional. 2010;26(5):457-63.

#### Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.