

Received: 27.11.2016

Accepted: 17.03.2017

Published: 30.06.2017

Jolanta Pietrzak<sup>1</sup>, Tomasz Koszutski<sup>2</sup>, Wojciech Madziara<sup>2</sup>, Anna Obuchowicz<sup>1</sup>

## Trichobezoar jako przyczyna guza w nadbrzuszu u nastolatki

### Trichobezoar as the underlying cause of an epigastric mass in an adolescent patient

<sup>1</sup> Oddział Kliniczny Pediatrii Katedry Pediatrii w Bytomiu, Wydział Nauk o Zdrowiu w Katowicach, Śląski Uniwersytet Medyczny w Katowicach, Katowice, Polska

<sup>2</sup> Klinika Chirurgii i Urologii Dziecięcej w Katowicach, Wydział Lekarski w Katowicach, Śląski Uniwersytet Medyczny w Katowicach, Katowice, Polska

Adres do korespondencji: Dr n. med. Jolanta Pietrzak, Oddział Kliniczny Pediatrii Katedry Pediatrii, ul. Stefana Batorego 15, 41-902 Bytom, tel./faks: +48 32 786 14 98, e-mail: pedbyt@sum.edu.pl

<sup>1</sup> Paediatric Clinic of the Bytom, Department of Paediatrics of the School of Health Sciences in Katowice, Medical University of Silesia, Katowice, Poland

<sup>2</sup> Department of Paediatric Surgery and Urology in Katowice, School of Medicine, Medical University of Silesia, Katowice, Poland

Correspondence: Jolanta Pietrzak, MD, PhD, Paediatric Clinic of the Bytom, Department of Paediatrics, Stefana Batorego 15, 41-902 Bytom, Poland, tel./fax: +48 32 786 14 98, e-mail: pedbyt@sum.edu.pl

#### Streszczenie

Trichobezoar to ciało lokalizujące się głównie w żołądku, złożone m.in. z włosów połączonych w wyniku trichotillomanii i trichotillofagii. Objawy są zwykle niespecyficzne, zależne od lokalizacji i wielkości trichobezoar. Zazwyczaj obserwuje się bóle w nadbrzuszu, wzdęcia, nudności, wymioty, uczucie pełności w jamie brzusznej, zaburzenia połykania, utratę łaknienia, ubytek masy ciała i nieprzyjemny zapach z ust. W artykule przedstawiono przypadek dziewczynki, u której bóle brzucha i nudności były mylnie interpretowane jako infestacja jelitowa, a następnie, przez kilka lat, jako refluks żołądkowo-przełykowy. Stwierdzono guz w nadbrzuszu, który w badaniach obrazowych wskazywał na istnienie bezoaru, po czym usunięto go chirurgicznie z dobrym efektem. W diagnostyce objawów gastroenterologicznych trzeba brać pod uwagę, zwłaszcza u dziewczynek i młodych kobiet, możliwość trichotillofagii – ważne jest więc rozszerzenie wywiadu lekarskiego o pytania dotyczące zachowań kompulsywnych. Po leczeniu należy objąć pacjentkę psychoterapią w celu zapobieżenia nawrotom.

**Słowa kluczowe:** bezoar, trichobezoar, guz brzucha, nastolatka

#### Abstract

Trichobezoar (hairball) is a foreign body typically located in the stomach, which is a collection of hair pulled out and swallowed as a result of trichotillomania and trichophagia. Its presentation usually lacks specificity, the exact constellation of symptoms correlating to the hairball's precise location and size. The most frequent signs include epigastric pain, flatulence, nausea, bloating, dysphagia, satiety, loss of weight and halitosis. We report a case of a female patient with abdominal pain and nausea initially misdiagnosed as intestinal infestation, and subsequently, for several years, as gastroesophageal reflux. Physical examination disclosed an epigastric mass. Imaging examinations demonstrated a bezoar, and the patient was successfully treated by means of surgical extraction. The differential diagnosis of gastrointestinal symptoms, especially in young females, should account for trichotillophagia, hence the need to enquire after compulsive disorders when taking patient history. Successful removal of a trichobezoar should be followed by psychotherapy to prevent recurrence of symptoms.

**Keywords:** bezoar, trichobezoar, abdominal mass, adolescent

## WSTĘP

Stwierdzenie oporu podczas badania palpacyjnego jamy brzusznej zawsze wymaga pilnej diagnostyki. Dolegliwości zgłaszane przez pacjentów najczęściej nie są specyficzne. Zwykle występują bóle brzucha, nudności, wymioty, wzdęcia, zaburzenia łaknienia. W różnicowaniu – w zależności od danych z wywiadu i lokalizacji oporu – bierze się pod uwagę nowotwory złośliwe (guz Wilmsa, nerwiak zarodkowy, chłoniak, potworniak, guzy narządów wewnętrznych: śledziony, trzustki, wątroby), wodonercze, torbielowość nerek czy torbiel krezki. Należy również pamiętać o bardzo rzadkiej przyczynie guza w jamie brzusznej – istnieniu ciała obcego w przewodzie pokarmowym pod postacią bezoaru.

Bezoarem nazywamy guz uformowany w świetle przewodu pokarmowego (najczęściej w żołądku, ale może się on utworzyć w każdym odcinku przewodu pokarmowego), występujący u ludzi i zwierząt, złożony z konglomeratu połączonych ciał obcych, śluzu oraz resztek pokarmu<sup>(1-5)</sup>.

Do powstania bezoaru dochodzi najczęściej w wyniku odkładania się w przewodzie pokarmowym włókien roślinnych i resztek owoców, np. ziaren słonecznika, dyni, arbuza, soczewicy (fitobezoar), włókien persymony – owocu kaki (diospyrobezoar) lub połączonych w związku z trichotillomanią włosów ze skóry głowy bądź innych regionów ciała (trichobezoar). Mogą występować postaci mieszane – trichofitobezoary. Zdecydowanie rzadziej spotyka się bezoary powstające wskutek zażywania leków nierozkładających się w przewodzie pokarmowym (farmakobezoar), odkładania się kazeinianu wapnia (laktobezoar) u dzieci przedwcześnie urodzonych<sup>(6,7)</sup> czy spożywania kamieni (litobezoar). Bezoary mogą również utworzyć się w wyniku połknięcia (głównie przez dzieci) włókien materiałowych, papieru i innych ciał obcych organicznego i nieorganicznego pochodzenia, takich jak włosie zabawek lub szczotek, guziki, monety<sup>(1-3,8,9)</sup>. Połknięte fragmenty zalegają w żołądku i jeśli nie zostaną przesunięte za sprawą ruchów perystaltycznych, są oklejane przez kolejne elementy – w ten sposób powstaje bezoar, czasem osiągający znaczne rozmiary. Do jego utworzenia może też dochodzić u chorych z pierwotnym zaburzeniem motoryki żołądka, wrodzonymi uchyłkami i zwężeniami przewodu pokarmowego, cukrzycą, chorobami tarczycy, chorobami neurologicznymi (np. dystrofią mięśniową, zespołem Guillaina–Barrégo) lub po przebytych zabiegach operacyjnych w obrębie żołądka (np. po fundoplikacji), gdy perystaltyka zostaje zmniejszona, a opróżnianie żołądka – opóźnione<sup>(1,3,8)</sup>.

W Europie najczęściej rozpoznawane są trichobezoary. Poniżej przedstawiono przypadek nastolatki z niespecyficznymi objawami gastroenterologicznymi i guzem w nadbrzuszu, u której stwierdzono obecność dużego bezoaru w żołądku.

## OPIS PRZYPADKU

Jedenastoletnia dziewczynka z nieobciążonym wywiadem ciążyowo-porodowym, rozwijająca się prawidłowo,

## INTRODUCTION

Finding a mass upon palpation of the abdomen invariably requires prompt diagnostics. Symptoms reported by patients tend to be nonspecific. Usually, abdominal pain, nausea, vomiting, flatulence and loss of appetite occur. The diagnostic workup, depending on patient history and the location of the palpated mass, typically includes malignancies (such as Wilms' tumour, neuroblastoma, lymphoma, teratoma, tumours of internal organs such as the spleen, pancreas and liver), hydronephrosis, polycystic kidney disease, or a mesenteric cyst. However, another possible cause of an abdominal tumour is the presence of a foreign body in the gastrointestinal tract, such as a bezoar.

A bezoar is a mass formed in the lumen of the gastrointestinal tract (most frequently in the stomach, but in fact it may arise in any portion of the digestive tract) of animals or humans, which is composed of a swallowed foreign body, mucous and food particles<sup>(1-5)</sup>.

Typically, bezoars form when plant fibres and fruit remnants accumulate in the gastrointestinal tract. The possible culprits may be sunflower, pumpkin or watermelon seeds, lentils (phytobezoars), and persimmon fibres (diospyrobezoars). They may also occur as a result of trichotillomania, when the patient chews and swallows hair from any area of the body, in which case they are known as trichobezoars. Sometimes, trichophytobezoars form of hairs and fruit or vegetable matter impacted in them. Pharmacobezoars formed by indigested drugs, lactobezoars formed by calcium caseinate accumulated in the stomach of premature neonates<sup>(6,7)</sup>, or lithobezoars due to ingesting stones are other exceptionally rare forms. Bezoars may also occur as a result of chewing and swallowing textile fibres (mainly by children), paper (cellulose), or other foreign bodies of organic or non-organic origin, such as toy fur, brush bristles, buttons or coins<sup>(1-3,8,9)</sup>. The ingested fragments accumulate in the stomach and unless moved by peristalsis, they impact other non-digested elements, leading to the formation of a bezoar, some of which may grow until large in size. Primary gastric peristalsis disorders, congenital diverticulosis or stenosis of the gastrointestinal tract, diabetes, thyroid disorders, neurologic conditions (e.g. muscular dystrophy, Guillain–Barré syndrome), or the condition after gastric procedures such as fundoplication, causing decreased peristalsis and delayed stomach emptying, are all entities with a predilection for bezoar forming<sup>(1,3,8)</sup>.

In Europe, trichobezoar is the most commonly diagnosed variety. Below, we report a case of an adolescent female patient with non-specific gastric symptoms and a mass found in the epigastrium, diagnosed with a large bezoar located in the stomach.

## CASE REPORT

An 11-year-old female patient with uneventful prenatal and labour history, came for a paediatric appointment due

zgłosiła się z matką do lekarza pediatri z powodu dolegliwości ze strony przewodu pokarmowego. Od kilku miesięcy występowały nawracające wymioty, dolegliwości bólowe w nadbrzuszu środkowym, szczególnie wieczorem, uczucie wypełnienia żołądka w godzinach wieczornych i nocnych oraz nudności. Okresowo dziewczynka oddawała luźniejsze stolce, okresowo miała zaparcia. Matkę niepokoiły ponadto apatia, brak przyrostu masy ciała, bladość skóry i podkrążone oczy córki, wzmożona potliwość i brak przyrostu włosów. W wywiadzie – poboлевания brzucha i okresowe wymioty w wieku 5 lat. Mimo braku odchyłań w badaniach laboratoryjnych pacjentka otrzymała wówczas pyrantel, dolegliwości ustąpiły. W 6. roku życia pojawiły się podobne objawy, na podstawie badania ultrasonograficznego (USG) jamy brzusznej rozpoznano refluks żołądkowo-przełykowy. Dziecko było leczone przez gastrologa inhibitorem pompy protonowej i otrzymywało Gastrotuss Baby. Odstawiono pokarmy zawierające kakao i pomarańcze, które według obserwacji matki miały nasilać objawy. Między 6. a 10. rokiem życia bóle brzucha były sporadyczne. W tym okresie dziewczynka zgłaszała okresowo niespecyficzne objawy, które określała jako „bąbki w brzuchu”. Matka podawała simetykon i drotawerynę oraz stosowała ciepłe okłady na brzuch.

W badaniu fizykalnym stwierdzono słabo rozwiniętą tkankę podskórną (masa ciała 26,8 kg, poniżej 3. centyla; długość ciała 135 cm, centyl 3.–10.; BMI 14,71, centyl 3.–10.), wyczuwalny twardy opór zajmujący środkowe i lewe nadbrzusze, brak samoistnej i palpacyjnej bolesności brzucha, prawidłowo słyszalną perystaltykę. Badania laboratoryjne krwi, moczu i kału nie wykazały odchyłań od normy. W badaniu USG jamy brzusznej – silnie echogeniczny twór dający szeroki cień akustyczny na całej długości żołądka, poza okolicą przedodźwiernikową.

Dziewczynkę skierowano na oddział chirurgii dziecięcej, gdzie ponownie wykonano badanie USG jamy brzusznej, potwierdzające obecność zmiany w żołądku. Tomografia komputerowa jamy brzusznej uwidoczniła powiększony żołądek, a w nim zmianę o cebulkowatej strukturze, niejednorodnej gęstości i wymiarach 4,5 × 5,3 × 22 cm, oddzieloną od ściany żołądka (doustny pozytywny środek kontrastowy oblewał ją w całości), nieulegającą wzmocnieniu po dożylnym podaniu środka kontrastowego (ryc. 1–3). Charakter zmiany sugerował rozpoznanie bezoaru.

Dopiero po tym badaniu matka uzupełniła wywiad, informując, że w okresie dzieciństwa dziewczynka była pod opieką psychologiczną z powodu m.in. trichotillomanii, zjadania włosów koców, sweterków i maskotek, a także obgryzania paznokci. Objawy pojawiły się po przeżyciu przez dziecko silnego stresu w wieku 3 lat i stopniowo ustępowały w ciągu 2 lat.

W trakcie laparotomii wydobyto bezoar o wymiarach 4,5 × 5,3 × 22 cm (ryc. 4, 5). Okres pooperacyjny przebiegł bez powikłań. Dziewczynka pozostaje pod opieką gastrologa i psychologa.



Ryc. 1. Tomografia komputerowa jamy brzusznej: bezoar – płaszczyzna poprzeczna

Fig. 1. Abdominal computed tomography: a bezoar – transverse plane

to symptoms from the gastrointestinal tract. For several months she had suffered from recurrent vomiting, epigastric pain (especially in the evenings), sensation of bloating at night and nausea. The girl alternatively passed loose stools and suffered from constipation. Her mother was also concerned with the child's apathy, absence of weight gain, pale skin and dark circles under the eyes, excessive sweatiness and insufficient hair growth. Patient history disclosed abdominal pain and periodical vomiting at the age of 5 years old. Despite no abnormal laboratory findings, the patient had been successfully treated with pyrantel, with her symptoms subsequently resolving. At 6 years old, similar symptoms recurred, and abdominal ultrasound demonstrated gastroesophageal reflux. The child was started on proton pump inhibitor therapy by the treating gastroenterologist, receiving Gastrotuss Baby. Some foods, including cacao and oranges, observed by the mother to exacerbate the girl's symptoms, were discontinued. Between 6 and 10 years old, her symptoms were sporadic. Over that period, the girl only complained about non-specific symptoms at times, describing them as "bubbles in her stomach." The mother gave her simethicone and drotaverine, and applied warm compresses to the child's stomach to alleviate the symptoms.

Physical examination disclosed poorly developed subcutaneous tissue (body weight 26.8 kg, less than 3<sup>rd</sup> percentile, height 135 cm: 3<sup>rd</sup>–10<sup>th</sup> percentile, BMI 14.71: 3<sup>rd</sup>–10<sup>th</sup> percentile), a solid mass palpable in central and left epigastrium, no abdominal tenderness on palpation or otherwise, normal peristaltic sound. Blood, urine, and stool laboratory findings were normal. Abdominal ultrasound showed a strongly echogenic structure with a broad acoustic shadow along the complete abdominal length except the prepyloric region.

The patient was referred to a paediatric surgery unit, where another abdominal ultrasound confirmed the presence of a gastric mass. Abdominal computed tomography scan demonstrated an enlarged stomach with a lesion of a multilayer structure and nonhomogeneous density,



Ryc. 2. Tomografia komputerowa jamy brzusznej: bezoar – płaszczyna czołowa

Fig. 2. Abdominal computed tomography: a bezoar – coronal plane

## OMÓWIENIE

Objawy wynikające z obecności bezoaru są niespecyficzne, zwykle zależne od jego lokalizacji i wielkości. Mogą utrzymywać się przez wiele lat<sup>(8)</sup>. Są to zazwyczaj bóle w nadbrzuszu (70,2% chorych), wzdęcia, nudności i wymioty (64%), uczucie pełności w jamie brzusznej, trudności w połykaniu (zwłaszcza pokarmów stałych), utrata łaknienia, spadek masy ciała, refluks żołądkowo-jelitowy, nieprzyjemny zapach z ust<sup>(1-3,8,9)</sup>. U opisywanej pacjentki ból brzucha i nudności zgłaszane przez nią uprzednio były interpretowane jako infestacja jelitowa (bez udokumentowania laboratoryjnego) oraz refluks żołądkowo-przełykowy. Wczesne fazy tworzenia się bezoaru, ze względu na niespecyficzne objawy i brak zmian w badaniu fizykalnym, mogą być nieprawidłowo interpretowane<sup>(8)</sup>. Biegunki na przemian z zaparciami, występujące u prezentowanej chorej, należą do rzadziej stwierdzanych objawów. Mariotto i wsp. podają, że występują one u 32% pacjentów z bezoarami<sup>(8)</sup>.

Czasami bezoar prowadzi do powstania wgłobienia, niedrożności, owrzodzenia i perforacji ściany żołądka



Ryc. 4. Bezoar uwidoczniony w trakcie zabiegu operacyjnego

Fig. 4. The bezoar visible during the surgical intervention



Ryc. 3. Tomografia komputerowa jamy brzusznej: bezoar – płaszczyna strzałkowa

Fig. 3. Abdominal computed tomography: a bezoar – sagittal plane

sized 4.5 × 5.3 × 22 cm, separated from the gastric wall (a positive oral contrast agent surrounded the structure), unenhanced on intravenous administration of a contrast medium (Figs. 1–3). The lesion's character was indicative of a bezoar.

Following this exam, the mother provided the missing patient history, informing the medical staff that the girl had been covered by psychological care in her early childhood due to trichotillomania, chewing textile fibres from blankets, sweaters and soft toys, and nail-biting. Her psychological symptoms manifested following severe stress suffered at the age of 3 years old, and resolved gradually over the next 2 years. A bezoar sized 4.5 × 5.3 × 22 cm (Figs. 4, 5) was successfully extracted on laparotomy. The postoperative period was uneventful. The patient remains under gastroenterology and psychology care.

## DISCUSSION

Manifestations caused by bezoars are nonspecific, with the constellation of symptoms depending on the mass's exact



Ryc. 5. Bezoar o wymiarach 4,5 × 5,3 × 22 cm po usunięciu

Fig. 5. The bezoar, sized 4.5 × 5.3 × 22 cm, after extraction



lub jelita z objawami ostrego brzucha, do żółtaczki zastoinowej, zapalenia dróg żółciowych czy zapalenia trzustki, a nawet do śmierci<sup>(2,3,5,8,10)</sup>. W opisywanym przypadku następstwem istnienia bezoaru były zaburzenia wzrastania i stanu odżywienia dziewczynki.

Mimo dużej masy długotrwale zalegającej w żołądku dziecka w trakcie zabiegu chirurgicznego stwierdzono jedynie nieznaczny obrzęk błony śluzowej żołądka i mięsiste krwawienie z powierzchni, bez innych zmian. Zwykle trichobezoar, uciskając naczynia krwionośne błony śluzowej, powoduje niedokrwienie, powstanie nadżerek i owrzodzeń, a nawet perforację<sup>(5,9)</sup>. Przewlekłe krwawienia związane z obecnością tego tworów mogą wywoływać niedokrwistość z niedoboru żelaza<sup>(1,2,8)</sup>. U opisywanej pacjentki wyniki wszystkich badań laboratoryjnych były prawidłowe.

Odporność włosów na trawienie oraz ich gładkość, uniemożliwiająca poddanie się ruchom perystaltycznym, skutkują odkładaniem się włosów w fałdach żołądka, a z czasem zbitciem się włosów, śluzu i resztek pokarmu w trichobezoar, przyjmujący zwykle kształt żołądka<sup>(5,8)</sup>. W prezentowanym przypadku osiągnął on bardzo duże rozmiary, co odpowiada danym z wywiadu, wskazującym na długi czas trwania choroby. Stwierdzenie niebolesnej twardej struktury w nadbrzuszu dziecka mogło sugerować zmianę nowotworową. Według danych z piśmiennictwa zazwyczaj właśnie w ten sposób są interpretowane guzy w nadbrzuszu<sup>(5)</sup>.

Trichobezoary w 90% przypadków powstają u kobiet poniżej 30. roku życia. Trichotillomania i trichofagia występuje u około 1–2% populacji<sup>(3,5,8)</sup>. Wyróżniono trzy typy trichotillomanii: u wczesnym początku, automatyczny i celowy. Pierwszy dotyczy zwykle dzieci do 8. roku życia i ustępuje bez leczenia lub po interwencjach psychologicznych. W postaci automatycznej chory wyrzywa włosy bezwiednie, bez zaangażowania uwagi. Wyrzywanie celowe, świadome najczęściej wiąże się z obecnością silnych bodźców emocjonalnych i ma charakter kompulsywny; spotykane jest u pacjentek w okresie pokwitania<sup>(11)</sup>. Trichobezoar może powstać również na skutek nawykowego, nieuwarunkowanego psychologicznie przygryzania końcówek włosów. U pacjentów z trichobezoarami zaburzenia psychiczne i związana z nimi trichotillomania mogą występować aktualnie lub należeć już do przeszłości<sup>(1,8)</sup>. W prezentowanym przypadku takie zachowania dziewczynki spowodował duży stres. Od czasu połknięcia włosów przez pacjentkę minęło około 8 lat – później, według relacji matki, podobne zachowania nie występowały. Autorzy prac dotyczących omawianego zagadnienia zwracają uwagę na trudności diagnostyczne związane ze świadomym bądź nieświadomym zatajeniem faktu połknięcia włosów czy ich przygryzania<sup>(3,8)</sup>. Tak było również w przedstawianym tu przypadku – zasadnicze dane z wywiadu uzyskano dopiero po leczeniu chirurgicznym.

Trichobezoar znacznej długości, sięgający od żołądka do jelit, został nazwany zespołem Roszpunki (Roszpunka to długowłosa bohaterka baśni braci Grimm). Jako pierwszy opisali go w 1968 roku Vaughan i wsp.<sup>(5,12,13)</sup> W zespole

location and size, and they may persist for many years<sup>(8)</sup>. Usually they include epigastric pain (70.2% of cases), flatulence, nausea and vomiting (64%), bloating, difficulty swallowing (especially solid foods), loss of appetite and weight, gastroesophageal reflux and halitosis<sup>(1–3,8,9)</sup>. In the case we are reporting, the abdominal pain and nausea the patient complained about had been misinterpreted as signs of a parasite infection (even though laboratory findings failed to confirm the diagnosis), and subsequently gastroesophageal reflux. Manifestations associated with the early stages of a bezoar forming may easily be misdiagnosed<sup>(8)</sup>. Alternating diarrhoea and constipation the patient presented with are among less frequent signs of the condition in question. According to Mariotto *et al.*, such symptoms are present in 32% of affected patients<sup>(8)</sup>.

At times, bezoars may lead to intussusception, obstruction, ulceration or perforation of the gastric or intestinal wall, presenting with acute abdomen, mechanical jaundice, cholangitis, pancreatitis, or even leading to the patient's death<sup>(2,3,5,8,10)</sup>. In the reported case, the bezoar caused failure to grow and impaired nutritional status of the patient. Despite a large mass that had lingered in the stomach for a long time, the only findings upon surgical intervention included slight swelling of the gastric mucosa, and parenchymal bleeding, with no additional lesions or complications. Typically, by compressing the blood vessels in the mucosa, a trichobezoar leads to ischaemia, erosions, ulceration, and even perforation<sup>(5,9)</sup>. Chronic bleeding associated with the presence of such a formation may also cause anaemia due to developing iron deficiency<sup>(1,2,8)</sup>. In the patient whose case we are reporting, all the laboratory findings were normal.

As hairs are indigestible and their smoothness makes them resistant to peristaltic movements, they get impacted in the gastric folds, with hairs, mucous and food particles sometimes accumulating to form a trichobezoar which adopts the shape of the stomach<sup>(5,8)</sup>. In the case we are discussing it grew achieving a considerable size, which corresponded with the patient's history indicating a long forming time. An asymptomatic solid mass found in the child's epigastrium was suspicious of a tumour. According to the data found in literature, tumours found in the epigastrium tend to be interpreted as cancerous lesions<sup>(5)</sup>.

Trichobezoars in 90% of cases occur in women younger than 30 years old. Trichotillomania and trichophagia occur in 1–2% of population<sup>(3,5,8)</sup>. Three types of trichotillomania have been classified, including early- or infancy-onset, automatic and focused. The first one typically affects children up to 8 years old, and resolves either without treatment or after psychological therapy. In its automatic form, the patient pulls out hair unconsciously, without engaging their attention. "Focused" trichotillomania is typically associated with powerful emotional stimuli, is compulsive in nature, and is typically displayed by menopausal women<sup>(11)</sup>. A trichobezoar may also be formed due to habitual, not psychologically-conditioned, chewing of hair ends. Patients

Rozpunkci część „ogona” trichobezoaru może ulec zerwaniu, a w następstwie migrować do jelit i wywołać niedrożność<sup>(5)</sup>. Opisywane są ponadto perforacje jelita cienkiego spowodowane obecnością bezoaru<sup>(9)</sup>.

Rozpoznanie ustala się na podstawie badania USG jamy brzusznej, tomografii komputerowej i endoskopii<sup>(1,2,10)</sup>. Gastrofiberoskopia pozwala nie tylko na uwidocznienie i ocenę charakteru bezoaru, lecz także – w niektórych przypadkach – na usunięcie go metodą nieinwazyjną w całości lub po rozkawałkowaniu struktury za pomocą mechanicznych albo laserowych technik fragmentacji<sup>(2,5,8)</sup>. Przeważnie konieczne jest jednak leczenie operacyjne (metodą klasyczną bądź laparoskopową)<sup>(1,5,8,10,14)</sup>. W piśmiennictwie opisano możliwe postępowanie zachowawcze – w celu eliminacji bezoarów pochodzenia roślinnego podawane są czasem preparaty papainy, acetylocysteiny i celulazy, z dobrym efektem<sup>(1,10)</sup>. Prezentowano też efekty leczenia pacjentów z fitobezoarem metodą płukania żołądka coca-colą podawaną przez sondę żołądkową<sup>(15)</sup>. Takie leczenie, atrakcyjne ze względu na małą inwazyjność, nie jest jednak uznawane za godne polecenia do rutynowego stosowania. Może zostać zastosowane jedynie w wybranych przypadkach<sup>(5,8)</sup>. Ze względu na wymiary bezoaru u opisywanej dziewczynki został on usunięty w sposób klasyczny. Konwencjonalna laparotomia jest nadal leczeniem z wyboru<sup>(1,5,9,10)</sup>. Gorter i wsp. dokonali przeglądu metod usuwania bezoarów w okresie od stycznia 1990 do stycznia 2009 roku. Znaleźli 40 przypadków prób usuwania bezoaru endoskopowo – tylko dwie z nich zakończyły się sukcesem<sup>(5)</sup>. Wielkość, twardość i gęstość zmiany utrudniają takie postępowanie<sup>(5)</sup>. Azevedo i wsp. sugerują, że zabieg musi być przeprowadzony przez doświadczonego specjalistę, zaznajomionego z różnego typu technikami endoskopowymi i dysponującego odpowiednim sprzętem<sup>(2)</sup>. Zabieg jest czasochłonny i obciążony dużym ryzykiem powikłań<sup>(2,9)</sup>. Usuwanie fragmentów rozkawałkowanego bezoaru wymaga powtarzania wprowadzania endoskopu, co może skutkować zapaleniem, jatrogennym uszkodzeniem i owrzodzeniem przełyku<sup>(2,8,9)</sup>. Fragmenty bezoaru mogą migrować i powodować niedrożność jelit<sup>(2,5,8)</sup>. Mariotto i wsp. uważają, że endoscopia może być użyteczna w usuwaniu małych bezoarów, ale udane interwencje przeprowadzane tą metodą są niezmiernie rzadkie<sup>(8)</sup>. Zakres diagnostyczny gastrokopii nie pozwala ponadto stwierdzić obecności bezoaru w jelitach<sup>(5)</sup>.

Metoda laparoskopowa wiąże się zwykle z trudnościami technicznymi podczas wydobywania dużego bezoaru i wymaga więcej czasu w porównaniu z konwencjonalną laparotomią. Trudniejsze jest staranne zbadanie układu pokarmowego w poszukiwaniu bezoarów satelitarnych, istnieje też duże ryzyko zanieczyszczenia jamy brzusznej w trakcie usuwania bezoaru<sup>(5,9,14)</sup>.

Liczni autorzy zwracają uwagę, że po leczeniu chirurgicznym ważna jest psychoterapia indywidualna i rodzinna<sup>(1,5,8,11)</sup>. Takie postępowanie zostało zalecone u opisywanej chorej, mimo że dane z wywiadu wskazywały na ustąpienie trichotillomanii i trichofagii.

with trichobezoars may be affected by the psychological disorders and the associated trichotillomania at the time of the symptoms, or merely have an eventful history<sup>(1,8)</sup>. In the case of our patient, her behaviour was caused by major stress she had suffered in her early childhood. Eight years had passed since she had been eating hairs, and according to her mother's account, such behaviour did not persist any more. Studies discussing the topic in question highlight the diagnostic challenges related to the patients' conscious or unconscious secretiveness regarding the fact of eating or chewing hair<sup>(3,8)</sup>. That was the case also for the patient referred to here, as the crucial information was disclosed by the mother as late as after the surgical extraction of the hairball.

Trichobezoars of considerable length, extending from the stomach to the intestines, have been termed as Rapunzel syndrome (after the long-haired character in Grimm brothers' story). It was for the first time described in 1968 by Vaughan *et al.*<sup>(5,12,13)</sup> In Rapunzel syndrome, part of the trichobezoar's "tail" may get disconnected from its "body," and transferred as a result to the intestines, where it may cause obstruction<sup>(5)</sup>. There have also been reports of perforation of the small intestine by bezoars<sup>(9)</sup>.

Conclusive diagnosis is made based on abdominal ultrasound, computed tomography and endoscopy<sup>(1,2,10)</sup>. Fiberscope endoscopy allows to visualise and evaluate the bezoar's character, and, in some case, to remove it in a non-invasive manner in one or more pieces, using mechanical or laser defragmentation methods<sup>(2,5,8)</sup>. Nonetheless, in most cases surgical treatment is necessary (conventional or laparoscopic)<sup>(1,5,8,10,14)</sup>. The use of conservative methods of treatment has been reported in the case of phytobezoars, with papain, acetylcysteine, and cellulase formulations used to a good effect<sup>(1,10)</sup>. Also, treatment with coca-cola administered directly into the stomach through a nasogastric tube has been attempted<sup>(15)</sup>, yet in spite of its attractiveness due to low invasiveness, it is not considered effective enough for routine use. It may, however, find its application in some selected cases<sup>(5,8)</sup>.

Owing to its size, the bezoar in our patient was removed in a conventional way. Conventional laparotomy remains the method of choice<sup>(1,5,9,10)</sup>. Gorter *et al.* reviewed the methods of all reported extractions reported to have taken place in the period between January 1990 and January 2009. They identified 40 cases where endoscopic extraction attempts were made, with only two of them being successful<sup>(5)</sup>. The size, hardness, and density of the lesion make it difficult to remove in with such means<sup>(5)</sup>. Azevedo *et al.* have suggested that the potential procedure should be performed by an experienced specialist, familiar with various endoscopic techniques, and adequately equipped<sup>(2)</sup>. The procedure is time-consuming and has a high risk of complications<sup>(2,9)</sup>. Extraction of the fragmented bezoar piece by piece requires repeated introduction of the endoscope, potentially leading to inflammation, iatrogenic injury and ulceration of the oesophagus<sup>(2,8,9)</sup>. The fragments may also migrate within the

## PODSUMOWANIE

W diagnostyce objawów ze strony przewodu pokarmowego zgłaszanych przez pacjenta i jego rodziców oraz guza w nadbrzuszu stwierdzonego na podstawie badania klinicznego należy uwzględnić rzadką przyczynę, jaką jest bezoar. Dotyczy to zwłaszcza dziewczynek i młodych kobiet zgłaszających się do lekarza z niespecyficznymi objawami: bólami w nadbrzuszu, zmęczeniem, utratą masy ciała. U takich pacjentek elementem diagnostyki powinno być rozszerzenie wywiadu lekarskiego o pytania odnoszące się do zachowań kompulsywnych, w tym trichotillomanii, warunkującej powstanie trichobezoaru. Po skutecznym leczeniu, najczęściej operacyjnym, istnieje konieczność objęcia pacjentki psychoterapią w celu uniknięcia nawrotu.

### Konflikt interesów

*Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść publikacji oraz rościć sobie prawo do tej publikacji.*

### Piśmiennictwo / References

1. Jones A: Caustic ingestion and foreign bodies: damage to the upper gastrointestinal tract. In: Wyllie R, Hyams JS (eds.): *Pediatric Gastrointestinal and Liver Disease: Pathophysiology, Diagnosis, Management*. 3<sup>rd</sup> ed., Saunders Elsevier, Philadelphia 2006: 261–273.
2. Azevedo S, Lopes J, Marques A *et al.*: Successful endoscopic resolution of a large gastric bezoar in a child. *World J Gastrointest Endosc* 2011; 3: 129–132.
3. Poniewierka E, Arlukiewicz-Fajkiel A, Paradowski L: [Bezoars – classification, diagnosis, treatment]. *Gastroenterol Pol* 2008; 15: 265–268.
4. Wang C, Zhao X, Mao S *et al.*: Management of SAH with traditional Chinese medicine in China. *Neurol Res* 2006; 28: 436–444.
5. Gorter RR, Kneepkens CMF, Mattens ECJL *et al.*: Management of trichobezoar: case report and literature review. *Pediatr Surg Int* 2010; 26: 457–463.
6. Towery HH, Chan RK: Lactobezoar: a case report. *Clin Pediatr* 2004; 43: 577–578.
7. Heinz-Erian P, Gassner I, Klein-Franke A *et al.*: Gastric lactobezoar – a rare disorder? *Orphanet J Rare Dis* 2012; 7: 3.
8. Mariotto A, Peretti M, Scirè G *et al.*: Trichobezoars in children: therapeutic complication. *Med Surg Ped* 2014; 36: 221–223.
9. Castle SL, Zmora O, Papillon S *et al.*: Management of complicated gastric bezoars in children and adolescents. *Isr Med Assoc J* 2015; 17: 541–544.
10. Hoover K, Piotrowski J, St Pierre K *et al.*: Simultaneous gastric and small intestinal trichobezoars – a hairy problem. *J Pediatr Surg* 2006; 41: 1495–1497.
11. Duke DC, Keeley ML, Geffken GR *et al.*: Trichotillomania: a current review. *Clin Psychol Rev* 2010; 30: 181–193.
12. Naik S, Gupta V, Naik S *et al.*: Rapunzel syndrome reviewed and redefined. *Dig Surg* 2007; 24: 157–161.
13. Vaughan ED Jr, Sawyers JL, Scott HW Jr: The Rapunzel syndrome. An unusual complication of intestinal bezoar. *Surgery* 1968; 63: 339–343.
14. Cintolo J, Telem DA, Divino CM *et al.*: Laparoscopic removal of large gastric trichobezoar in a 4-year-old girl. *JLS* 2009; 13: 608–611.
15. Ladas SD, Kamberoglou D, Karamanolis G *et al.*: Systematic review: Coca-Cola can effectively dissolve gastric phytobezoars as a first-line treatment. *Aliment Pharmacol Ther* 2013; 37: 169–173.

gastrointestinal tract, causing intestinal obstruction<sup>(2,5,8)</sup>. Mariotto *et al.* consider endoscopic methods useful for the removal of small bezoars, yet claim the successful interventions by this method to be extremely rare<sup>(8)</sup>. Moreover, the diagnostic scope of upper gastrointestinal endoscopy precludes identification of a bezoar in the intestines<sup>(5)</sup>. Minimally invasive surgery is frequently associated with technical difficulties when extracting a large bezoar and requires more time than conventional laparotomy. Thorough examination of the gastrointestinal tract in search of satellite bezoars is difficult, and there is a considerable risk of contaminating the abdominal cavity when removing the formation<sup>(5,9,14)</sup>.

Numerous authors have emphasised that individual and family psychotherapy is an inherent part of the treatment following bezoar removal<sup>(1,5,8,11)</sup>. That was also the recommendation for the patient in question, even though her history indicated that she no longer suffered from trichotillomania and trichophagia.

## CONCLUSION

The diagnostics of gastrointestinal symptoms reported by the patient and their parents, accompanied by the presence of an epigastric mass found in clinical examination should invariably cover the possibility of a rare disease entity known as bezoar, especially in the case of young female patients reporting nonspecific symptoms such as epigastric pain, fatigue and weight loss. The diagnostic workup should include enquiries related to compulsive disorders, trichotillomania among them, that may cause the formation of trichobezoars. Once the patient has been successfully treated, usually by surgical intervention, they should be referred for psychotherapy to prevent relapses.

### Conflict of interest

*The authors do not report any financial or personal links to other persons or organizations that could adversely affect the content of this publication or claim rights thereto.*