

Dispareunia, vaginismo, iperattività del muscolo elevatore e tossina botulinica: il ruolo del neurologo

L. BERTOLASI¹, M. BOTTANELLI¹, A. GRAZIOTTIN²

RIASSUNTO: Dispareunia, vaginismo, iperattività del muscolo elevatore e tossina botulinica: il ruolo del neurologo.

L. BERTOLASI, M. BOTTANELLI, A. GRAZIOTTIN

I disturbi sessuali caratterizzati da dolore, il vaginismo e la dispareunia, hanno in comune il dolore e la variabile contrattilità del muscolo elevatore dell'ano (EA), che può essere primaria, presente fin dall'inizio dei rapporti, o secondaria al dolore comparso in seguito a eventi infiammatori vaginali, tra cui la vestibolite vulvare (VV). Tuttavia la letteratura sull'argomento è controversa.

Obiettivo del lavoro: 1) esaminare l'attività del muscolo EA mediante elettromiografia (EMG), grazie al coinvolgimento di specialisti neurologi, in un campione di 67 donne: a) 16 (23.8%) con vaginismo primario e impossibilità alla penetrazione; b) 21 (31.3%) con dispareunia primaria complicata da VV; c) 30 (44.7%) con dispareunia secondaria, associata a VV. 2) valutare il rilassamento muscolare e la riduzione del dolore in risposta a terapia iniettiva sull'EA con tossina botulinica, 20 UI, ogni 2-3 mesi.

Risultati: un miglioramento significativo della sintomatologia è stato riportato nel 46.6% nel gruppo di pazienti con vaginismo primario, nel 71.4% in quello con dispareunia primaria complicata da VV, 76.6% con dispareunia secondaria associata a vestibolite. 18 pazienti su 67 (26.8%) hanno sospeso il trattamento dopo mediamente 3 sedute per regressione della sintomatologia. Le percentuali di guarigione sono state: 20% tra le pazienti con vaginismo primario (dopo in media 3.6 sedute), 23.8% tra quelle con dispareunia primaria complicata da vestibolite (dopo in media 1.2 sedute), 46.6% in quelle con dispareunia secondaria a vestibolite (dopo in media 2.4 sedute).

Conclusioni: una variabile iperattività del muscolo EA è un tratto comune tra vaginismo e dispareunia. Il trattamento con tossina botulinica può contribuire a ridurre significativamente il sintomo dolore, che può scomparire in una percentuale variabile tra il 20% (vaginismo primario) e il 46,6% (dispareunia secondaria). Questi dati suggeriscono che l'integrazione della tossina botulinica con la terapia sessuologica possa accelerare la guarigione. Questo dato va confermato in studi prospettici controllati. Il neurologo esperto di EMG e di trattamento con BT può contribuire alla diagnosi e al trattamento dei disturbi sessuali caratterizzati da dolore, nell'ambito di un approccio multidisciplinare.

SUMMARY: Dyspareunia, vaginismus, hyperactivity of the pelvic floor and botulin' toxin: the neurologist' role.

L. BERTOLASI, M. BOTTANELLI, A. GRAZIOTTIN

Sexual pain disorders (vaginismus and dyspareunia) share two traits: the sexual pain and a variable contraction of the levator ani (LA). This contraction can be either lifelong, or acquired as a defensive response to vulvovaginal inflammatory diseases, such as vulvar vestibulitis. However controversy still exists on the involvement of the LA.

Aim of the research: 1) to examine the activity of the LA with an electromyographic recording, performed by neurologists expert in the technique, in 67 women: a) 16 (23.8%) with severe lifelong vaginismus, and impossibility to intercourse; b) 21 (31.3%) with lifelong dyspareunia, complicated with vulvar vestibulitis (VV); c) 30 (44.7%) with acquired dyspareunia, associated with VV. 2) to evaluate the clinical response to a local injection, in the LA, of 20 UI of botulin toxin (BT), administered every 2-3 months, aimed at pharmacologically relax the LA and consequently reduce sexual pain.

Results: a significant improvement in the pain symptom was recorded in 46.6% of patients with lifelong vaginismus; in 71.4% of patients with lifelong dyspareunia complicated with VV; in 76.6% of patients with acquired dyspareunia associated with VV. 18/67 patients (26.8%) had no more symptoms after an average three BT sessions. The cure rate was: 20% in patients with lifelong vaginismus (after an average 3.6 sessions); 23.8% in patients with lifelong dyspareunia complicated with VV (after an average 1.2 sessions); 46.6% in patients with acquired dyspareunia associated to VV (after on average 2.4 sessions).

Conclusions: a variable hyperactivity of the EA muscle is a common pathophysiologic trait between vaginismus e dyspareunia. BT treatment may contribute to significantly reduce sexual pain, which may disappear in a percentage which varies between 20% (primary vaginismus) and 46,6% (acquired dyspareunia). BT may contribute to significantly reduce pain in sexual pain disorders. These preliminary data suggest that BT can be considered as a valid adjuvant treatment in sexual pain disorders. A controlled study is needed to further validate this finding. The neurologist, expert in the diagnosis and treatment of LA hyperactivity may contribute to the diagnosis and treatment of sexual pain disorders, in a multidisciplinary approach.

KEY WORDS: Dispareunia - Vaginismo - Vestibolite vulvare - Iperattività del muscolo elevatore - Tossina botulinica - Neurologo.
Dyspareunia - Vaginismus - Vulvar vestibulitis - Hyperactivity of the pelvic floor - Botulin' toxin - Neurologist.

¹Università degli Studi di Verona
Dipartimento di Scienze Neurologiche e della Visione
Sezione di Neurologia Clinica
²Ospedale San Raffaele Resnati, Milano
Centro di Ginecologia e Sessuologia Medica

Introduzione

Il vaginismo viene attualmente classificato come un disturbo sessuale doloroso definito, secondo il DSM-IV, dai seguenti criteri: 1. spasmo involontario ricorrente o persistente della muscolatura del terzo segmento distale della vagina che interferisce con i rapporti sessuali; 2. marcato disagio o difficoltà interpersonali; 3. un disturbo non meglio spiegato da altri disordini di Asse I e non dovuto esclusivamente ad effetti fisiologici diretti di una condizione medica generale (1). La presenza di spasmi muscolari involontari rappresenta quindi un importante criterio diagnostico e Lamont stesso l'ha utilizzata come elemento chiave per la classificazione da lui pubblicata di vaginismo: I. Spasmo del muscolo elevatore dell'ano (EA) che si risolve rassicurando la paziente; II) spasmo del muscolo EA che persiste durante l'esame ginecologico; III) spasmo della muscolatura EA e tensione ai glutei ad ogni tentativo di visita ginecologica; IV) reazione neurovegetativa moderata, spasmo del muscolo EA, adduzione delle cosce, difesa e retrazione; V) reazione neurovegetativa estrema con rifiuto della visita ginecologica (2). Il dolore (o la paura dello stesso) rappresenta quindi un altro importante elemento nella diagnosi di vaginismo. Questi due elementi, il dolore e gli spasmi muscolari, sono tuttavia presenti nel corredo sintomatologico di donne con disturbi diversi della sfera sessuale. In particolare nelle donne affette da dispareunia è riconosciuta la presenza di uno spasmo muscolare involontario reattivo alla sintomatologia dolorosa (3, 4).

Dal punto di vista neurofisiologico, esiste tuttora un certo grado di confusione relativamente alla presenza dello spasmo della muscolatura vaginale, in particolare del muscolo EA. Diversi Autori hanno cercato di dimostrarlo in pazienti con disturbi dolorosi della sfera sessuale utilizzando tecniche differenti, fornendo tuttavia risultati spesso contraddittori (5, 6, 7, 8).

Brin et al. furono i primi nel 1997 ad utilizzare la tossina botulinica in pazienti affette da vaginismo (9). Da allora sono stati compiuti altri studi sul trattamento del vaginismo e di altre sindromi dolorose pelviche con tossina botulinica, con risultati soddisfacenti seppur riferiti a piccoli campioni (10, 11, 12).

In questo lavoro due neurologhe, LB e MB, hanno

esaminato l'attività del muscolo EA mediante elettromiografia in un campione di donne con vaginismo primario ("lifelong"); con dispareunia primaria ("lifelong"), complicata da vestibolite vulvare (VV); con dispareunia secondaria ("acquired") sottoposte successivamente a terapia con tossina botulinica, nell'ambito di un protocollo di trattamento multidisciplinare coordinato da AG.

Soggetti e metodi

Sono state incluse nello studio donne affette da vaginismo primario, da dispareunia primaria complicata da vestibolite e da vaginismo secondario a vestibolite. In tutte le pazienti incluse nello studio è stato inizialmente studiato il muscolo EA mediante elettromiografia. Lo studio elettromiografico ha previsto la valutazione di tre epoche: a) attività muscolare a riposo dopo un minuto dall'inserzione dell'ago; b) attività muscolare dopo corretta manovra di ponzamento; c) attività muscolare da contrazione volontaria a sforzo crescente fino al massimale. L'attività muscolare basale è stata classificata in tre gradi: 0) nella norma; 1) aumentata fino a configurare un tracciato ricco; 2) aumentata fino a configurare un tracciato sub-interferenziale. L'eventuale presenza di reclutamento paradossico di nuove unità motorie con il ponzamento è stata similmente classificata in tre classi a seconda del quadro elettromiografico: 0) nessun reclutamento paradossico; 1) tracciato ricco; 2) tracciato sub-interferenziale. Le pazienti sono state successivamente tutte trattate con tossina botulinica di tipo A (Dysport™). Il beneficio relativo alla terapia è stato valutato mediante appositi questionari di soddisfazione.

Tutte le pazienti hanno accettato di firmare un consenso informato precedentemente approvato dal Comitato Etico locale.

Risultati

Nel periodo compreso fra il gennaio 2004 e il giugno 2005 sono state incluse nello studio 67 donne con sindromi sessuali dolorose soddisfacenti i criteri del DSM-IV per la diagnosi di vaginismo e dispareunia. Di queste 67 pazienti, 16 (23.8%) erano affette

TABELLA 1 - ETÀ MEDIA DELLE PAZIENTI E CO-MORBILITÀ CON ALTRI DISTURBI SFINTERICI.

	Età	Stipsi	Disturbi urinari
Vaginismo primario	33.8 (D.S. 6.43)	35.7%	0%
Dispareunia primaria complicata con VV	31.47 (D.S. 6.2)	45% (10% severa)	10% (cistiti asettiche)
Dispareunia secondaria associata a VV	32.8 (D.S. 6.7)	59.2% (22.2% severa)	18.5% (cistiti asettiche, disuria)

da vaginismo primario, 21 (31.3%) da dispareunia primaria complicata da VV; 30 (44.7%) da dispareunia secondaria, o acquisita, associata a VV. L'età media delle pazienti e l'associazione con altri disturbi sfinterici è mostrata in Tabella 1.

In Tabella 2 sono riportati i risultati relativi all'attività elettromiografica delle pazienti esaminate. Le pazienti sono state tutte trattate con tossina botulinica di tipo A iniettata nel muscolo EA. La dose media di tossina botulinica è stata 20 UI. Tutte le pazienti sono state seguite con un follow-up variabile da 2 a 14 mesi. Mediamente le pazienti sono state trattate ogni 2-3 mesi. Il beneficio globale inteso come maggior rilassamento muscolare agli esercizi di *stretching* e/o riduzione della componente dolorosa a riposo e durante i rapporti sessuali è stato il seguente: 46.6% nel gruppo di pazienti con vaginismo primario, 71.4% in quello con dispareunia primaria complicata da vestibolite, 76.6% con vaginismo secondario a vestibolite. Diciotto pazienti su 67 (26.8%) hanno sospeso il trattamento dopo mediamente 3 sedute per regressione della sintomatologia. In particolare le percentuali di guarigione sono state: 20% tra le pazienti con vaginismo primario (dopo in media 3.6 sedute), 23.8% tra quelle con dispareunia primaria complicata da VV (dopo in media 1.2 sedute), 46.6% in quelle con vaginismo secondario a VV (dopo in media 2.4 sedute). Nessuna paziente ha presentato effetti collaterali, ad eccezione di una che ha riferito incontinenza urinaria di lieve entità, transitoria, della durata di una settimana, dopo la somministrazione di 20 U di tossina botulinica.

Discussione

La diagnosi di vaginismo presuppone, secondo i criteri del DSM-IV(1), la presenza di uno spasmo involontario della muscolatura del terzo distale della vagina. Tuttavia, non esiste ancora una visione concorde fra i diversi Autori relativamente all'esistenza di una vera e propria attività muscolare involontaria obiettivabile con le comuni tecniche neurofisiologiche. Reissing et al. (2004) hanno cercato di indagare il valore diagnostico dello spasmo vaginale attraverso approcci differenti, tra cui l'elettromiografia di super-

ficie, in tre gruppi di donne affette da vaginismo, dispareunia con vestibolite vulvare, controlli negativi.

Gli Autori hanno riscontrato un aumento del tono muscolare vaginale all'esame fisico delle donne con vaginismo. Tuttavia, non è stata evidenziata alcuna differenza significativa tra i tre gruppi nell'analisi dell'attività elettromiografica, anche se il 46% delle donne con vaginismo aveva rifiutato di essere sottoposta all'esame (contro lo 0% dei rimanenti gruppi) (7). Shafik A. e El-Sibai O. (2002) hanno studiato le caratteristiche neurofisiologiche del piano pelvico di un gruppo di donne con vaginismo e di uno di controllo utilizzando l'elettromiografia ad ago concentrico. Gli Autori hanno riportato un'attività elettromiografica significativamente maggiore nelle donne con vaginismo rispetto ai controlli negativi (8).

La dimostrazione dell'esistenza di una contrazione involontaria della muscolatura del piano pelvico in donne con difficoltà ad avere rapporti completi appare importante non solo ai fini diagnostici ma anche terapeutici. In particolare la presenza di una contrazione muscolare involontaria a livello del piano pelvico, e dell'introito vaginale nello specifico, tale da rendere dolorosa e alla fine impossibile il rapporto sessuale, è un elemento comune a diverse tipologie di pazienti. Nel nostro studio, condotto su 67 pazienti, abbiamo identificato tre gruppi di pazienti: a) affette da vaginismo primario e impossibilità alla penetrazione (con rapporto o matrimonio non consumato); b) con dispareunia primaria complicata da VV (dolore durante i rapporti fin dall'inizio dell'attività sessuale, anche se tale da consentire la penetrazione, seppure con dolore); c) dispareunia acquisita secondaria a VV.

In tutti e tre i gruppi lo studio elettromiografico con ago-elettrodo concentrico ha evidenziato una elevata percentuale di aumentata attività muscolare involontaria (Tab. 2), intesa come aumento del tono basale e/o reclutamento paradossico di nuove unità motorie con il ponzamento. In particolare nel gruppo di donne con vaginismo, il 100% delle pazienti ha presentato un'attività muscolare basale a riposo più ricca rispetto alla norma. È quindi ipotizzabile che nel gruppo con vaginismo primario e in quello con dispareunia primaria un'aumentata contrazione muscolare involontaria del piano pelvico sia presente fin

TABELLA 2 - DATI RELATIVI ALL'ELETTROMIOGRAFIA DEL MUSCOLO ELEVATORE DELL'ANO (VEDI TESTO PER SPIEGAZIONI).

	0	1	2	0	1	2
Vaginismo primario	0%	42.8%	57.2%	28.5%	37.5%	35.7%
Dispareunia primaria complicata da VV	5%	35%	60%	15%	40%	45%
Dispareunia secondaria associata a VV	25.9%	18.5%	55.5%	29.6%	25.9%	44.4%

dai primi rapporti, con gradi differenti di intensità, tali in un caso da precludere la possibilità di avere una penetrazione completa, nell'altro di permetterla ma con marcata reazione dolorosa, e spesso a costo di microlesioni vulvari, pabulum per infezioni batteriche e fungine. Nel gruppo di pazienti con dispareunia secondaria, la contrazione muscolare involontaria, che costituisce la risposta difensiva ad un processo flogistico locale, sarebbe responsabile di un circolo vizioso difficilmente risolvibile con le terapie comuni. In tutti questi casi, tuttavia, abbiamo ipotizzato la possibilità di trattare il disturbo mediante l'inoculo di tossina botulinica di tipo A nel muscolo EA che abbiamo studiato precedentemente. Tutte le pazienti hanno accettato di essere sottoposte alla terapia. Il beneficio globale, inteso sia come maggior rilassamento muscolare avvertito in corso degli esercizi di *stretching* che tutte le pazienti eseguivano anche prima del trattamento, sia come riduzione della componente dolorosa, sia a riposo che durante i rapporti sessuali, si è rivelato alto in tutti e tre i gruppi, ma i risultati migliori si sono ottenuti nei gruppi con dispareunia primaria e secondaria. Prendendo in considerazione anche le percentuali di guarigione, ovvero la percentuale di pazienti che hanno sospeso il trattamento per scomparsa della sintomatologia, questa risulta più bassa nel gruppo di pazienti con vaginismo primario. Questi risultati suggeriscono innanzitutto che probabilmente le pazienti con vaginismo primario presentano un quadro clinico più grave, che potrebbe richiedere un maggior numero di sedute ed eventualmente, una dose maggiore. Inoltre, il vaginismo severo ha un'importante componente fobica

a base neurobiologica, che necessita di parallelo trattamento farmacologico e sessuologico (15, 19). Di converso, la dispareunia primaria può riconoscere una comorbilità con un vaginismo di media gravità, che consente la penetrazione, seppur dolorosa, e che può rispondere più rapidamente al trattamento farmacologico. Del pari, è probabile che la natura difensiva dello spasmo dell'elevatore in risposta al dolore, tipico della vestibolite vulvare, consenta una più rapida e soddisfacente risposta clinica al trattamento locale con tossina botulinica.

Lo specialista neurologo/a può contribuire alla diagnosi e al trattamento dei disturbi sessuali caratterizzati da dolore, nell'ambito di un approccio interdisciplinare, grazie alla rilevazione elettromiografica dell'iperattività del muscolo elevatore e al trattamento locale con tossina botulinica.

Conclusioni

Il trattamento con tossina botulinica appare sicuro, povero di effetti collaterali, e ben accettato da pazienti con vaginismo e dispareunia associati a dimostrata iperattività del muscolo elevatore. I nostri dati, seppur preliminari, indicano che il trattamento con tossina botulinica potrebbe divenire parte integrante di uno schema di trattamento multidisciplinare, cui partecipa il neurologo, per donne con disturbi dolorosi della sfera sessuale nei quali sia identificabile una componente di iperattività muscolare del piano pelvico. Questi dati preliminari andranno confermati in studi prospettici controllati.

Bibliografia

1. AMERICAN PSYCHIATRIC ASSOCIATION: *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders*. Fourth Edition, Text Revision. Washington, DC: Author, 2000.
2. LAMONT J.A.: *Vaginismus*. Am J Obstet Gynecol 131(6): 633-6, 1978.
3. PUKALL C.F., LAHAIE M.A., BINIK Y.M.: *Sexual pain disorders: Etiologic factors*, in: Goldstein I. Meston CM, Davis S, Traish A, *Female Sexual Dysfunction*, First edition (in press).
4. GRAZIOTTIN A., BROTTO L.A.: *Vulvar vestibulitis syndrome: a clinical approach*. J Sex Marital Ther 30(3): 125-39, 2004.
5. van der VELDE J., EVERAERD W.: *The relationship between involuntary pelvic floor muscle activity, muscle awareness and experienced threat in women with and without vaginismus*. Behaviour Research and Therapy 39: 395-408, 2001.
6. de KRUIFF M.E., ter KUILE M.M., WEIJENBORG P.T.M., van LANKVELD J.J.D.M.: *Vaginismus and dyspareunia: is there a difference in clinical presentation?* Journal of Psychosomatic Obstetrics and Gynaecology 21: 149-55, 2000.
7. REISSING E.D., BINIK Y.M., KHALIFÉ S., COHEN D., AMSEL R.: *Vaginal Spasm, Pain, and Behavior: An Empirical Investigation of the Diagnosis of Vaginismus*. Archives of Sexual-Behavior 33(1): 5-17, 2004.
8. SHAFIK A., EL-SIBAI O.: *Study of the pelvic floor muscles in vaginismus: a concept of pathogenesis*. European Journal of Obstetrics & Gynecology and Reproductive Biology 105: 67-70, 2002.
9. BRIN M.F., VAPNEK J.M.: *Treatment of vaginismus with botulinum toxin injections*. Lancet 349: 252-3, 1997.
10. THOMSON A.J.M., JARVIS S.K., LENART M., ABBOTT J.A., VANCAILLE T.G.: *The use of botulinum toxin type A*

- (BOTOX®) as treatment for intractable chronic pelvic pain associated with spasm of the levator ani muscles. BJOG; 112: 247-259, 2005.
11. GUNTER J., BREWER A., TAWFIK O.: *Botulinum toxin A for vulvodynia: a case report*. The Journal of Pain; 5(4): 238-240, 2004.
 12. GHAZIZADEH S., NIKZAD M.: *Botulinum toxin in the treatment of refractory vaginismus*. Obstet Gynecol; 104: 922-925, 2004.
 13. BASSON R.: *Are the complexities of women's sexual function reflected in the new consensus definitions of dysfunction?* J Sex Marital Ther; 27(2): 105-12, 2001.
 14. BASSON R., LEIBLUM S., BROTTTO L., DEROGATIS L., FOURCROY J., FUGL-MEYER K., GRAZIOTTIN A., HEIMAN J.R., LAAN E., MESTON C., SCHOVER L., van LANKVELD J., SCHULTZ W.W.: *Definitions of women's sexual dysfunction reconsidered: advocating expansion and revision*. J Psychosom Obstet Gynaecol; 24(4): 221-9, 2003.
 15. PLAUT M., GRAZIOTTIN A., HEATON J.: *Sexual Dysfunction*. Abingdon, Health Press, Oxford, 2004.
 16. van der VELDE J., LAAN E., EVERAERD W.: *Vaginismus, a component of a general defence mechanism: An investigation of pelvic floor muscle activity during exposure to emotion-inducing film excerpts in women with or without vaginismus*. International Urogynecology Journal and Pelvic Floor Dysfunction; 12: 328-331, 2001.
 17. HALLET M.: *Dystonia: abnormal movements result from loss of inhibition*. Advances Neurol; 94: 1-9, 2004.
 18. GRAZIOTTIN A., BOTTANELLI M., BERTOLASI L.: *Vaginismus: a clinical and neurophysiological study*. In: Graziottin A. (ed) *Female Sexual Dysfunction—Clinical approach*. Urodynamic, 14 (2): 117-121, 2004.
 19. GRAZIOTTIN A.: *Treatment of sexual dysfunction*. In: Bo K, Berghmans B, van Kampen M, Morkved S, ed. *Evidence Based Physiotherapy for the Pelvic Floor*. Bridging Research and Clinical Practice, Elsevier: Oxford, UK, (in press), 2006.
-