

RAFAŁ PRZYBYLSKI, \*PAULINA MALINOWSKA

# Neuralgia nerwu sromowego – trudna droga diagnostyczna

Pudendal neuralgia – a challenging diagnostic pathway

Warsaw Proctology Centre, St. Elizabeth's Hospital in Warsaw

## Streszczenie

Autorzy przedstawiają przypadek kliniczny dotyczący pacjenta z neuralgią nerwu sromowego (zwanej również zespołem kanału Alcocka), którego droga diagnostyczna i lecznicza trwała ponad 6 lat. Podejrzenie neuralgii zostało postawione po ok. 6 miesiącach od początku wystąpienia objawów, lecz na skutek braku skuteczności podejmowanego przez pacjenta leczenia poszukiwał on innych przyczyn dolegliwości. Przeżył leczenie urologiczne w związku z podejrzeniem zapalenia prostaty, leczenie proktologiczne w związku z bólem okolicy odbytu oraz bólem przy defekacji, podejmował terapię w wielu ośrodkach leczenia bólu, poddał się również psychoterapii w związku z podejrzeniem psychogennej natury dolegliwości. Żadne działania terapeutycznie nie przyniosły pacjentowi oczekiwanej poprawy, co znacząco obniżyło jego jakość życia. Autorzy w podsumowaniu podkreślają, że leczenie pacjentów z neuralgią nerwu sromowego jest trudne, najczęściej wieloletnie, obejmuje zabiegi fizjoterapeutyczne i w sporadycznych sytuacjach leczenie operacyjne. Dolegliwość jest rzadka i niewiele jest ośrodków zajmujących się diagnostyką i leczeniem pacjentów z neuralgią nerwu sromowego, dlatego też pacjenci z tą chorobą często przez wiele lat oczekują na właściwą diagnozę i leczenie.

## Summary

We present a clinical case of a male patient with pudendal neuralgia (also known as Alcock's canal syndrome), whose diagnostic and therapeutic path lasted more than 6 years. Although the suspicion of neuralgia was raised about 6 months after symptom onset, the failure of the treatment undertaken by the patient prompted him to seek other causes underlying the manifestations. He underwent urological treatment for suspected prostatitis, proctological treatment for perianal pain and pain on bowel movement, therapy at a number of pain management centers, and psychotherapy for suspected psychogenic nature of symptoms. None of these therapeutic approaches led to the expected improvement, which significantly reduced the patient's quality of life. In conclusion, we emphasise that the treatment of patients with pudendal neuralgia is difficult, usually takes many years, as well as includes physiotherapy and, occasionally, surgical treatment. Pudendal neuralgia is rare and there are few centers for the diagnosis and treatment of patients with this disorder. Therefore, the affected patients often wait many years for proper diagnosis and treatment.

## WSTĘP

Neuralgia nerwu sromowego jest schorzeniem rzadkim, a jego rzeczywista częstość występowania nie jest znana. Zgodnie z szacunkami International Pudendal Neuropathy Foundation częstość występowania wynosi 1 na 100 000 osób, ale uważa się, że wartość ta jest zaniżona (1).

Zespół uwięźnięcia nerwu sromowego może dotyczyć w przybliżeniu 1% populacji ogólnej i w ok. 4% stanowi

## Słowa kluczowe

proctalgia, nerw sromowy, neuralgia  
nerwu sromowego

## Keywords

proctalgia, pudendal nerve, pudendal  
neuralgia

## INTRODUCTION

Pudendal neuralgia (PN) is a rare condition, and its actual incidence is unknown. The International Pudendal Neuropathy Association estimates an incidence of 1 in 100,000 people, which is however believed to be underestimated (1).

Pudendal nerve entrapment (PNE) may affect approximately 1% of the general population and accounts for approximately 4% of all patients consulted for perineal

przyczynę bólu okolicy kroczca wszystkich pacjentów konsultowanych z tego powodu, przy czym kobiet dotyka ponad dwukrotnie częściej niż mężczyzn (2).

## OPIS PRZYPADKU

Trzydziestosiedmioletni pacjent z nieobciążonym wywiadem w kierunku chorób przewlekłych od okresu dojrzewania (13.-15. r.ż.) odczuwał bóle w cewce moczowej podczas mikcji i ejakulacji oraz bóle kroczca.

W 30. roku życia zaczął odczuwać bóle w okolicy kroczca, o większym nasileniu po stronie lewej, narastające po przyjęciu pozycji siedzącej szczególnie na twardym siedzeniu. Bóle były większe w ciągu dnia. Pacjent skarżył się również na bolesność podczas mikcji i częstomocz, ale tylko w ciągu dnia, trudności w utrzymaniu erekcji oraz ból w trakcie ejakulacji, sporadycznie odczuwał ból odbytu oraz ból przy defekacji, ale tylko po lewej stronie. Dolegliwości nie występowały podczas snu i nad ranem – nasilały się w ciągu dnia i po współżyciu seksualnym. Wywiad w kierunku przebytych urazów kroczca i operacji proktologicznych był negatywny.

Pacjent odczuwał trzy rodzaje bólu w okolicy kroczca i odbytu:

- stresowy,
- pojawiający się przy siedzeniu, szczególnie na twardym podłożu,
- przeczulicę skóry.

Z powodu powyższych dolegliwości był konsultowany przez urologa. Rozpoznano przewlekłe zapalenie prostaty. Pacjent nie będąc zadowolony z konsultacji oraz zaniepokojony postawionym rozpoznaniem, zaczął na własną rękę poszukiwać w internecie informacji na temat chorób mogących wywoływać podobne do występujących u niego dolegliwości. W ten sposób dowiedział się o możliwości wykonania EMG nerwów sromowych, które wykonał na „własną rękę” w sektorze prywatnym. EMG wykazało uszkodzenie lewego nerwu sromowego. Ponieważ dostępność do tego badania jest bardzo ograniczona, samo badanie jest również obarczone dużym ryzykiem błędów (aby wyniki były miarodajne, pacjent musi spełnić wiele wymagań), w związku z powyższym jego przydatność kliniczna jest podważana i nie jest ono zbyt często wykonywane.

Podejrzanie neuralgii nerwu sromowego na podstawie EMG postawiono dość szybko – około pół roku od początku nasilenia się stałych dolegliwości bólowych. Pacjent zgłosił się do Poradni Leczenia Bólu w jednym z warszawskich szpitali.

Ponadto w wywiadzie odnotowano:

- W 21. r.ż. artroskopia kolana lewego – szcicie łąkotki po urazie skrętnym podczas gry w piłkę nożną.
- W tym okresie po wykonaniu RTG w pozycji stojącej lekarze ortopedzi rozpoznali skrócenie prawej kończyny dolnej o ok. 7 mm. Początkowo pacjent nosił wkładki korekcyjne, ale z powodu bólów biodra podczas noszenia wkładki zaprzestał ich stosowania.
- W 24. r.ż. zdiagnozowano przebyłą chorobę Scheuermanna potwierdzoną w MR kręgosłupa piersiowego.
- W 26. r.ż. hospitalizacja na oddziale neurologii z powodu bólów mięśni klatki piersiowej i ramion – wykluczo-

pain, with women affected more than twice as often as men (2).

## CASE REPORT

A 37-year-old man with no history of chronic diseases had been experiencing urethral pain during voiding and ejaculation, as well as perineal pain since adolescence (13-15 years of age).

In his 30s, he developed perineal pain, more severe on the left side, increasing in a sitting position, especially on a hard seat. The pain was greater during the day. The patient also complained of pain on voiding and urinary frequency (only during the day), difficulty maintaining an erection and pain during ejaculation, occasional anal pain and pain during bowel movement, but only on the left side. No symptoms were experienced during sleep and in the morning, but they increased during the day and after sexual intercourse. He had negative history of perineal trauma and anorectal surgery.

The patient experienced three types of perineal and anal pain:

- stress-induced,
- sitting-related (especially on a hard surface),
- hyperesthesia.

The man was consulted by a urologist for the above symptoms and was diagnosed with chronic prostatitis. Dissatisfied with the consultation and concerned about the diagnosis, he began to search the Internet for information on disorders that could produce similar symptoms to those he was experiencing. This is how he found out about the possibility of pudendal EMG, which he had performed “on his own” in a private office. The EMG showed damage to the left pudendal nerve. Since the availability of this test is very limited, the test itself has a high risk of error (the patient has to meet a number of requirements in order for the results to be reliable), its clinical usefulness is questioned and it is rarely employed.

EMG-based suspicion of PN was made relatively quickly, about six months after the onset of chronic pain. The patient reported to the Outpatient Pain Management Clinic at one of hospitals in Warsaw.

His medical history further included:

- At 21 years, left knee arthroscopy – suturing of the meniscus after a torsional injury while playing football.
- At that time, he received an orthopaedic diagnosis of shortening of the right lower limb of about 7 mm based on an X-ray in the standing position. The patient used orthotic insoles, which he discontinued due to hip pain.
- At 24 years, he was diagnosed with a history of Scheuermann’s disease confirmed by thoracic MRI of the spine.
- At 26 years, he was admitted to the department of neurology for thoracic and shoulder muscle pain; MS was ruled out, among other things, and Tietze’s syndrome was diagnosed (so far asymptomatic).
- At 27 years, he was diagnosed with left knee arthroscopy due to traumatic damage to the meniscus (menis-

no m.in. SM i rozpoznano zespół Tietza – obecnie brak dolegliwości z tego powodu.

- W 27. r.ż. artroskopia lewego kolana z powodu porazowego uszkodzenia łąkotki (szycie łąkotki) oraz więzadła krzyżowego tylnego (rekonstrukcja więzadła).
- W 29. r.ż. borelioza wykluczona w Szpitalu Zakaźnym w Warszawie.
- W 29. r.ż. rozpoznano tężyczkę utajoną – leczona dietą i suplementacją magnezu, witaminy D<sub>3</sub> i B complex.
- W 35. r.ż. operacja z powodu złamania trójkostkowego prawego stawu skokowego – materiał do zespolenia usunięto.

W pierwszym roku od wystąpienia dolegliwości pacjent miał wykonane:

1. blokady lewego nerwu sromowego bez kontroli USG przez anestezjologa w poradni leczenia bólu – po wykonaniu blokady nie było jednak poprawy, a nawet występowało okresowe nasilenie dolegliwości po jej wykonaniu,
2. pacjent poza NFZ wykonał termolezję lewego nerwu sromowego pod kontrolą USG – zabieg nie przyniósł poprawy,
3. rehabilitację mięśni dna miednicy i dźwigacza odbytu – fizykoterapię, terapię manualną, elektrostymulację – zabiegi nie przyniosły poprawy,
4. pacjent rozpoczął psychoterapię grupową i indywidualną.

W drugim roku od wystąpienia dolegliwości mężczyzna miał wykonane:

1. wstrzyknięcie toksyny botulinowej w okolicy mięśni zwieraczy odbytu – zabieg nie zmniejszył dolegliwości,
2. pacjent poza NFZ wykonał kriolezję lewego nerwu sromowego pod kontrolą USG – brak poprawy po zabiegu,
3. pacjent zaczął przyjmować pregabalinę w dawce 2 x 150 mg, co spowodowało niewielkie zmniejszenie dolegliwości,
4. przyjmował trójpierścieniowe leki przeciwdepresyjne – nie spowodowały one jednak poprawy i nie miały wpływu na dolegliwości krocza i okolicy odbytu,
5. zaczął unikać dłuższego siedzenia, siedział na poduszce rehabilitacyjnej z otworem odciążającym.

W związku z bólami w okolicy odbytu oraz bólami przy defekacji był kilkakrotnie konsultowany przez lekarzy proktologów.

Pacjent odczuwał powyższe dolegliwości przez około 6 lat. Po 6 latach ponownie „na własną rękę” poza NFZ wykonał badanie EMG nerwów sromowych w tej samej pracowni co poprzednio – badanie wykazało większe niż poprzednio uszkodzenie nerwu sromowego. Po ponownej konsultacji proktologicznej oraz ponownej konsultacji przez rehabilitanta specjalizującego się w chorobach dna miednicy pacjent został zakwalifikowany do leczenia zabiegowego.

W 2023 roku mężczyzna miał wykonane w odstępach kilkumiesięcznych następujące trzy zabiegi w Europejskim Centrum Przewlekłego Bólu Miednicy (EUCCPP):

1. blokadę lewego nerwu sromowego bupiwakainą z epinefryną + ostryknięcie toksyną botulinową mięśni

cus suturing) and posterior cruciate ligament (ligament reconstruction).

- At 29 years, Lyme disease was ruled out at the Hospital for Infectious Diseases in Warsaw.
- At 29 years, latent tetany was diagnosed; managed with diet and supplementation of magnesium, vitamin D<sub>3</sub> and B complex.
- At 35 years, surgery due to a trimalleolar fracture of the right ankle; the fusion material was removed.

In the first year after symptom onset, the patient underwent:

1. non-US-guided left pudendal nerve block performed by an anaesthesiologist at a pain management clinic, with no postoperative improvement, but instead even a periodic worsening of symptoms,
2. US-guided RF ablation of the left pudendal nerve (not reimbursed by the National Health Fund), with no improvement,
3. rehabilitation of the pelvic floor and the levator ani (physical therapy, manual therapy, electrostimulation), with no improvement,
4. group and individual psychotherapy.

In the second year after symptom onset, the patient:

1. underwent Botulinum toxin (BTX) injection in the area of the anal sphincter muscles, with no improvement,
2. underwent US-guided cryoneurolysis of the left pudendal nerve (not reimbursed by the National Health Fund), with no improvement,
3. started pregabalin at 2 x 150 mg, which caused a slight reduction in the symptoms,
4. received psychiatric pharmacotherapy, which, however, caused no improvement and had no effect on the perineal or anal symptoms,
5. started to avoid sedentary position for longer periods of time and used a donut seat cushion.

Due to perianal pain and pain on bowel movement, the patient was consulted several times by proctologists.

He had been experiencing the above symptoms for about 6 years. After 6 years, he reported for repeated pudendal EMG in the same laboratory as before (not reimbursed by the National Health Fund), which showed greater damage to the pudendal nerve compared to baseline. After another proctological consultation and another consultation by a rehabilitation specialist in the field of pelvic floor disorders, the patient was qualified for surgical treatment.

He underwent the following three procedures at several-month intervals, at the European Centre for Chronic Pelvic Pain (EUCCPP) in 2023:

1. Left pudendal block with bupivacaine and epinephrine + BTX injection of the pelvic floor. A short-term symptom reduction by approx. 10% was observed postoperatively.
2. Bilateral pudendal block with bupivacaine and epinephrine + BTX injection to the pelvic floor and the left piriformis muscle. There was a permanent symptom reduction by further 20%, i.e. a total of approx.

dna miednicy. Po tym zabiegu nastąpiło krótkotrwałe zmniejszenie dolegliwości o ok. 10%,

2. obustronną blokadę nerwów sromowych bupiwakainą z epinefryną + ostrzyknięcie toksyną botulinową mięśni dna miednicy oraz lewego mięśnia gruszkowatego. Nastąpiło trwałe zmniejszenie dolegliwości o kolejne 20%, czyli łącznie ok. 30% po 2 zabiegach, i ustąpiły całkowicie bóle stresowe,
3. obustronną blokadę nerwów sromowych bupiwakainą z epinefryną + ostrzyknięcie toksyną botulinową mięśni dna miednicy wykonano już po wszczępieniu neurostymulatora – ten zabieg nie wpłynął na zmniejszenie dolegliwości bólowych, ale według pacjenta miał wpływ na utrzymanie efektu zniesienia nadmiernego napięcia mięśni dna miednicy.

Z powodu utrzymujących się dolegliwości bólowych pomimo podania toksyny botulinowej, pacjent w 2023 roku był konsultowany neurologicznie i neurochirurgicznie w Szpitalu Uniwersyteckim nr 2 im. dr Jana Bizuela w Bydgoszczy.

Przy pomocy stymulatora zewnętrznego wykonano stymulację korzeni krzyżowych dwiema elektrodami wprowadzonymi do kanału kości krzyżowej. Uzyskano zmniejszenie dolegliwości bólowych o kolejne 20% (łącznie o 50% od rozpoczęcia leczenia) i zakwalifikowano pacjenta do wszczępienia podskórnego generatora impulsów do neurostymulacji. Zabieg wszczępienia generatora wykonano po ok. 3 tygodniach, przebieg pooperacyjny był bez powikłań. Generator impulsów pracuje stale 24 h/dobę, a jego pracę można regulować poprzez aplikację zainstalowaną w telefonie pacjenta. W początkowym okresie generator pracował w trybie wywołującym mrowienia na przebiegu uszkodzonego nerwu – obecnie pracuje w trybie nieodczuwalnym dla pacjenta. Następuje dalsze zmniejszanie się dolegliwości – po roku od wszczępienia generatora impulsów do neurostymulacji pacjent ocenia poprawę o kolejne 10%, czyli łącznie o ok. 60% po zastosowaniu terapii toksyną botulinową na mięśnie dna miednicy i po wszczępieniu generatora.

Z powodu umiejscowienia generatora pod skórą na plecach w linii paska od spodni, co utrudnia leżenie na plecach i jest uciążliwe na co dzień, planowana jest wymiana generatora na mniejszy, który będzie ładowany indukcyjnie i umiejscowiony w bardziej dogodnym miejscu.

Po około 1,5 roku od rozpoczęcia leczenia zabiegowego (3 zabiegi z użyciem toksyny botulinowej + wszczępienie neurostymulatora) uzyskano następujące efekty:

1. całkowite ustąpienie bólu pojawiającego się w okresach wzmożonego stresu,
2. znaczne zmniejszenie (o ok. 60%) częstotliwości i nasilenia bólu pojawiającego się przy współżyciu,
3. znaczne zmniejszenie (o ok. 60%) nasilenia bólu pojawiającego się przy siedzeniu,
4. zaprzestanie przyjmowania pregabaliny,
5. przeczulica skóry właściwie nie występuje, a pojawiające się okresowo niewielkie dolegliwości ustępują po miejscowym zastosowaniu 1-2 razy w miesiącu kremu z kapsaicyną.

30% after 2 procedures, and the stress-induced pain resolved completely.

3. Bilateral pudendal block with bupivacaine and epinephrine + BTX injection to the pelvic floor following neurostimulator implantation. Although this procedure did not reduce the pain, it had an impact on maintaining the effect of relieving excessive pelvic floor tension, as reported by the patient.

Due to persistent pain despite BTX injections, the patient reported for neurological and neurosurgical consultation in 2023 at the Dr Jan Biziel University Hospital No. 2 in Bydgoszcz.

Using an external stimulator, the sacral roots were stimulated with two electrodes inserted into the sacral canal. Pain reduction by further 20% was achieved (a total of 50% since treatment onset), and the patient was qualified for the implantation of a subcutaneous pulse generator for neurostimulation. The implantation procedure was performed after approximately 3 weeks, and the postoperative course was uneventful. The pulse generator works continuously for 24 hours a day, and can be controlled through an application installed on the patient's phone. Initially, the generator worked in a mode causing tingling sensation along the damaged nerve, but currently it operates in a mode that is imperceptible to the patient. The symptoms continue to decrease. A year after implantation of the device, the patient estimates an improvement of further 10%, i.e. a total of about 60% after pelvic floor BTX therapy and after implantation of the generator.

Since the generator is located under the skin on the back in the line of the trouser belt, which makes lying on the back difficult and is inconvenient in everyday life, the generator is planned to be replaced with a smaller one, which will be charged inductively and implanted in a more convenient body location.

After approximately 1.5 years from the onset of surgical treatment (3 BTX treatments + neurostimulator implantation), the following outcomes were achieved:

1. complete relief of stress-induced pain,
2. significant reduction (by approx. 60%) in the frequency and intensity of pain during intercourse,
3. significant pain reduction (by approx. 60%) when sitting,
4. discontinuation of pregabalin,
5. hyperesthesia of the skin is virtually absent, with minor periodic symptoms resolving after local application of a capsaicin cream 1-2 times a month.

## DISCUSSION

The above-described history of the patient's symptoms and therapeutic process clearly shows that proper diagnosis of pudendal neuralgia is challenging, thorough history collection is essential, diagnostic methods are not easily accessible, and effective treatment options are limited.

## DYSKUSJA

Opisana powyżej historia dolegliwości i leczenia pacjenta pokazuje jednoznacznie, że właściwe rozpoznanie neuralgii nerwu sromowego jest trudne, wnikliwy wywiad jest konieczny, metody diagnostyczne nie są łatwo dostępne, a możliwości skutecznego leczenia niepełne.

Spektrum objawów związanych z uszkodzeniem nerwu sromowego jest bardzo szerokie. Nerw ten jest nerwem mieszanym, czuciowo-ruchowym, powstaje głównie z gałęzi brzusznych nerwów rdzeniowych S2-S4, może przyjmować również włókna od pozostałych nerwów krzyżowych, zawiera włókna czuciowe, ruchowe, współczulne (ze zwojów pnia współczulnego drogą gałęzi łączących) oraz włókna przywspółczulne przeznaczone dla narządów miednicy i narządów płciowych. Jest długą gałęzią splotu krzyżowego o skomplikowanym przebiegu. Początkowo wychodzi z miednicy przez dolną część otworu kulszowego większego, między dolnym brzegiem m. gruszkowatego a m. guzicznym, następnie owija się wokół kolca kulszowego i wraca do miednicy, przechodząc przez otwór kulszowy mniejszy, dostając się do dołu kulszowo-odbytniczego – tu przebiega początkowo na przyśrodkowej powierzchni guza kulszowego, a następnie kieruje się do przodu w kanale sromowym (utworzonym przez rozdwojenie powięzi zasłonowej). W tylnej części kanału sromowego dzieli się na końcowe gałęzie: nerwy kroczone i n. grzbietowy prącia lub łechtaczki (3). Zakres unerwienia obejmuje: skórę krocza i narządów płciowych zewnętrznych z wyjątkiem wżgórka łonowego i przedniej części moszny/warg sromowych, mięsień dźwigacz odbytu, mięsień guziczny, mięsień zwieracz zewnętrzny odbytu, mięsień opuszkowo-gąbczasty, mięsień kulszowo-jamisty, mięsień poprzeczny krocza powierzchniowy, mięsień poprzeczny krocza głęboki, włókna układu autonomicznego biegnące z tym nerwem unerwiają trzewia i naczynia miednicy. Tak więc zakres unerwienia jest szeroki i skutki ucisku lub uszkodzenia tego nerwu mogą być rozległe.

W przypadku pacjenta opisanego w artykule występowały dolegliwości, które początkowo sugerowały schorzenie urologiczne i takie było początkowe rozpoznanie. Następnie dolegliwości bólowe mogły sugerować schorzenie proktologiczne.

W przypadku porażenia czy przerwania ciągłości nerwu sromowego dochodzi do nietrzymania moczu i kału oraz impotencji.

Ból jest najczęściej wynikiem ucisku tego nerwu przez otaczające struktury anatomiczne.

W celu usystematyzowania diagnostyki neuralgii nerwu sromowego opracowano Kryteria Nantes (2, 4). Obejmują one:

1. ból w obszarze anatomicznym nerwu sromowego,
2. ból nasilający się podczas siedzenia,
3. ból nie wybudza pacjenta w nocy,
4. brak obiektywnej utraty czucia w badaniu klinicznym,
5. pozytywny efekt blokady nerwu sromowego.

Dolegliwości opisywanego pacjenta spełniały powyższe kryteria, tak więc można było u niego postawić rozpoznanie neuralgii nerwu sromowego.

The spectrum of symptoms associated with pudendal nerve damage is very wide. This mixed, sensory-motor nerve arises mainly from the ventral rami of the S2-S4 spinal nerves, but can also receive fibres from the other sacral nerves. It contains sensory, motor, sympathetic (from the ganglia of the sympathetic trunk via connecting branches) and parasympathetic fibres supplying the pelvic and genital organs. It is a long branch of the sacral plexus with a complicated course. Initially, it exits the pelvis through the lower part of the greater sciatic foramen, between the lower border of the piriformis and the coccygeus, then wraps around the ischial spine and re-enters the pelvis, passing through the lesser sciatic foramen and entering the ischioanal fossa, where it initially runs on the medial surface of the ischial tuberosity, and then passes forward in the pudendal canal (formed by division of the obturator fascia). In the posterior part of the pudendal canal, it divides into terminal branches: the perineal nerves and the dorsal nerve of the penis or clitoris (3). The range of innervation includes: perineal and external genital skin except the mons pubis and anterior part of the scrotum/labia, levator ani, coccygeus muscle, external anal sphincter, bulbospongiosus muscle, ischiocavernosus muscle, superficial transverse perineal muscle, deep transverse perineal muscle. Autonomic fibres running with this nerve supply the viscera and pelvic vessels. Thus, the range of innervation is wide and the effects of compression or damage to this nerve can be extensive.

Our patient presented with symptoms that initially suggested a urological condition and this was the initial diagnosis. Later, the pain symptoms could suggest a proctological condition. In the case of paralysis or disruption of the pudendal nerve, urinary and faecal incontinence and impotence occur.

The pain most often arises from compression of this nerve by the surrounding anatomical structures. In order to systematize the diagnosis of PN, the Nantes Criteria (2, 4) were developed. These include:

1. Pain in the anatomical territory of the pudendal nerve.
2. Pain worsened by sitting.
3. The patient is not woken at night by the pain.
4. No objective sensory loss on clinical examination.
5. Positive anaesthetic pudendal nerve block.

Our patient met the above criteria, and therefore could be diagnosed with PN. Since the pain is neuropathic in nature, patients may report burning, piercing or numbness. The symptoms worsen during the day, as in our patient. Some individuals report urinary frequency, while excluding urinary tract infection and other objective causes. Women experience vulvodinia, dyspareunia, and may also report pain occurring a few hours after sexual intercourse, as well as a foreign body sensation in the vagina and/or anus. Men may report erectile dysfunction, dysejaculation, penile numbness, and a foreign body sensation in the anus. Patients may also experience discomfort when wearing tight underwear. Our patient reported both pain during intercourse and anal pain.

Ponieważ ból zgłaszany przez pacjentów jest bólem neuropatycznym, może być opisywany jako pieczenie, klucie czy drętwienie. Dolegliwości nasilają się w ciągu dnia. Również u przedstawionego przez nas pacjenta dolegliwości bólowe nasilały się w ciągu dnia. Niektórzy pacjenci zgłaszają częstość przy wykluczeniu zakażenia układu moczowego oraz innych obiektywnych przyczyn jego występowania. U kobiet występują wulwodnia, dyspareunia, pacjentki mogą również zgłaszać ból występujący nie w trakcie samego współżycia, ale w kilka godzin po jego zakończeniu, poczucie obecności ciała obcego w pochwie i/lub odbycie. Mężczyźni mogą zgłaszać zaburzenia erekcji, dys ejakulację, poczucie drętwienia prącia, poczucie ciała obcego w odbycie. Chorzy mogą również odczuwać dyskomfort podczas noszenia obcisłej bielizny. Przedstawiony pacjent zgłaszał bóle przy współżyciu oraz bóle w okolicy odbytu.

W celu ułatwienia diagnozy opracowano również kryteria wykluczenia, które obejmują: występowanie wyłącznie bólu kości ogonowej, pośladka lub podbrzusza, bólu napadowego, wyłącznie świądu oraz stwierdzenie zmiany ogniskowej w badaniach obrazowych mogącej stanowić jednoznaczny przyczynę dolegliwości. Żadne z powyższych nie występowało u opisywanego pacjenta.

Neuralgia nerwu sromowego może wynikać z urazów mechanicznych lub niemechanicznych (2). Uraz mechaniczny może być spowodowany rozciąganiem, uszkodzeniem lub znacznie częściej uciskiem. W przedstawionym przypadku wykluczono uraz mechaniczny, ból najprawdopodobniej wynikał z ucisku nerwu w kanale Alcocka.

W zależności od poziomu ucisku z uwzględnieniem anatomii możemy wyróżnić cztery typy uwięźnięcia nerwu (2):

- typ I – uwięźnięcie poniżej mięśnia gruszkowatego, w miejscu wyjścia nerwu przez otwór kulszowy większy,
- typ II – uwięźnięcie między więzadłem krzyżowo-guzowym i krzyżowo-kołcowym (jest to najczęstsze miejsce uwięźnięcia nerwu sromowego),
- typ III – uwięźnięcie w kanale Alcocka,
- typ IV – uwięźnięcie gałęzi końcowych.

Uszkodzenie mechaniczne nerwu sromowego może stanowić powikłanie bezpośredniego urazu pośladków lub pleców (2). Występuje również jako powikłanie zabiegów w obrębie dna miednicy, np. po operacjach naprawczych wypadania narządów miednicy mniejszej – częściej w przypadku użycia siatki (5). W następstwie przewlekłych mikrourazów krocza również może dojść do neuralgii, np. w przypadku nadmiernej jazdy na rowerze – w tej sytuacji dochodzi do zwłóknienia kanału sromowego, a także więzadeł krzyżowo-kołcowych i krzyżowo-guzicznych (6). Z tego względu neuralgia nerwu sromowego bywa również nazywana „chorobą cyklistów”. Przebyte urazy sportowe u opisywanego pacjenta powstały na skutek gry w piłkę nożną. Jedynie praca siedząca mogła stanowić czynnik ryzyka.

Neuralgia spowodowana nadmiernym rozciągnięciem nerwu sromowego występuje jako powikłanie porodu, szczególnie w przypadku przedłużonej II fazy (7).

Do niemechanicznych przyczyn neuralgii należą m.in.: infekcje wirusowe (półpasiec [8], HIV), stwardnienie rozsiane (2),

In order to facilitate the diagnosis, the following exclusion criteria were also proposed: purely coccygeal, gluteal, or hypogastric pain, exclusively paroxysmal pain, exclusive pruritus, imaging abnormalities explaining the symptoms. None of these was present in our patient.

PN can arise from mechanical or non-mechanical trauma (2). Mechanical trauma can be caused by stretching, damage or, more often, compression. In the presented case, mechanical trauma was excluded, and the pain most likely resulted from compression of the nerve in the Alcock's canal.

Depending on the level of compression and given the anatomical conditions, four types of nerve entrapment may be distinguished (2):

- Type I – entrapment below the piriformis muscle as the pudendal nerve exits the greater sciatic notch,
- Type II – Entrapment between sacrospinous and sacrotuberous ligaments is the most common site of pudendal nerve entrapment,
- Type III – Entrapment in the Alcock canal,
- Type IV – Entrapment of terminal branches.

Mechanical damage to the pudendal nerve may be a complication of direct trauma to the buttocks or back (2). It also occurs as a complication of pelvic floor procedures, e.g. after pelvic organ prolapse repair, especially when involving a mesh (5). Chronic perineal micro-trauma may also lead to neuralgia, e.g. in the case of excessive cycling; in this situation, fibrosis of the pudendal canal, as well as the sacrospinous and sacrococcygeal ligaments occurs (6). For this reason, pudendal neuralgia is also sometimes referred to as “cyclist's syndrome”. The sports injuries in the described patient were sustained while playing football. Only sedentary work could have been a risk factor in this case.

Neuralgia caused by excessive stretching of the pudendal nerve occurs as a complication of labour, especially in the case of prolonged stage 2 (7).

Non-mechanical causes of neuralgia include viral infections (shingles [8], HIV), multiple sclerosis (2), radiation therapy (9), and diabetes mellitus (10). Other causes include chronic constipation (2), prolonged sitting (2, 11), anatomical or physiological leg length discrepancy (which causes pelvic rotation possibly giving rise to “stretching” of the pudendal nerve), and psychogenic factors (11). Our patient had leg length discrepancy, worked in a sedentary position, and had previously undergone orthopaedic surgery due to sports injuries.

PN is a clinical diagnosis. The diagnosis is based on medical history (including risk factors, as well as genitourinary and anorectal symptoms) and a physical examination (11). On physical examination, the patient may experience pain in the piriformis muscle when pressing on the buttock, and pain during rectal and/or vaginal examination, more severe on one side. Attention should also be paid to incorrect positioning of the pelvis. As for diagnostic imaging, Doppler ultrasound of pudendal arteries and an attempt at CT-guided anaesthesia

radioterapia (9) i cukrzyca (10). Spośród innych przyczyn należy wymienić: przewlekłe zaparcia (2), długotrwałe przebywanie w pozycji siedzącej (2, 11), anatomicznie lub fizjologicznie krótszą kończynę dolną (sytuacja, która powoduje rotację miednicy, efektem może być „rozciąganie” nerwu sromowego) oraz podłoże psychogenne (11).

Opisywany przez nas pacjent miał skróconą jedną kończynę dolną, pracował w pozycji siedzącej, a w przeszłości przebył operacje ortopedyczne z powodu urazów sportowych.

Rozpoznanie neuralgii nerwu sromowego jest rozpoznaniem klinicznym. Diagnostyka opiera się na badaniu podmiotowym (uwzględniającym czynniki ryzyka, jak również dolegliwości dotyczące układu moczowo-płciowego, dolegliwości proktologiczne) i przedmiotowym (11). W trakcie badania może wystąpić ból mięśnia gruszkowatego podczas uciskania pośladka, ból podczas badania *per rectum* i/lub *per vaginam* z dominacją po jednej stronie, należy również zwrócić uwagę na nieprawidłowe ustawienie miednicy. Z badań obrazowych zastosowanie może mieć USG doppler tt. sromowych, a także próba znieczulenia nerwu sromowego pod kontrolą TK (11). Badania elektrofizjologiczne (elektromiografia i badania przewodnictwa nerwowego) badają tylko duże włókna ruchowe i mogą nie wykrywać selektywnych uszkodzeń małych włókien czuciowych (4).

Leczenie neuralgii nerwu sromowego obejmuje leczenie fizjoterapeutyczne, szeroko rozumiane leczenie bólu z uwzględnieniem wykonywania blokad nerwu sromowego różnymi technikami, leczenie farmakologiczne oraz leczenie operacyjne. W przedstawionym przez nas przypadku korzystny, ale nie w pełni satysfakcjonujący pacjenta, rezultat terapeutyczny uzyskano po przyjmowaniu doustnym pregabaliny oraz poobustronnej blokadzie nerwów sromowych bupiwakainą z epinefryną wraz z ostrzyknięciem toksyną botulinową mięśni dna miednicy oraz lewego mięśnia gruszkowatego.

Jednakże dopiero po około 1,5 roku od rozpoczęcia leczenia zabiegowego (3 zabiegi z użyciem botoksu + wszczepienie neurostymulatora) uzyskano zadowalające pacjenta efekty lecznicze, które w sposób istotny dla pacjenta zmniejszyły uciążliwe dolegliwości bólowe i poprawiły jakość życia:

- całkowicie ustąpiły bóle pojawiające się w okresach wzmożonego stresu,
- znacznie zmniejszyła się (łącznie o ok. 60%) częstotliwość i nasilenie bólu pojawiającego się przy współżyciu,
- znacznie zmniejszyły się (łącznie o ok. 60%) bóle pojawiające się przy siedzeniu,
- pacjent przestał przyjmować pregabalinę,
- miejscowa przeczulica skóry pojawiająca się okresowo szybko ustępuje po miejscowym zastosowaniu kremu z kapsaicyną.

Leczenie operacyjne neuralgii nerwu sromowego polega na laparoskopowym uwolnieniu nerwu sromowego, ale zabieg ten jest wykonywane jedynie w kilku miejscach w Europie (11).

of the pudendal nerve may be used (11). Electrophysiological tests (electromyography and nerve conduction studies) only assess large motor fibres and may not detect selective damage to small sensory fibres (4).

PN is managed with physiotherapy, broadly understood pain management including pudendal nerve blocks using various techniques, as well as pharmacological and surgical treatment. In our patient, a favourable, but not fully satisfactory therapeutic outcome was achieved after oral pregabalin and bilateral pudendal blockade with bupivacaine and epinephrine in combination with BTX injections into pelvic floor muscles and the left piriformis muscle.

However, it was only after approximately 1.5 years from the onset of surgical treatment (3 BTX treatments + neurostimulator implantation) that the patient achieved satisfactory therapeutic outcomes, which significantly reduced chronic pain and improved the quality of life:

- the pain that appeared during increased stress resolved completely,
- the frequency and intensity of pain during intercourse decreased significantly (by approx. 60% in total),
- sitting-related pain decreased significantly (by approx. 60% in total),
- the patient discontinued pregabalin,
- local periodic skin hyperaesthesia resolved rapidly after capsaicin cream application.

The surgical treatment of PN involves laparoscopic neurectomy of the pudendal nerve, but this procedure is only performed in a few European centers (11).

## CONCLUSIONS

1. A preliminary diagnosis of pudendal neuralgia can be made based on a thorough medical history and exclusion diagnosis.
2. Treatment of patients with PN is challenging, usually lasts many years, and includes physiotherapy and, in rare cases, surgery.
3. There are few centers that diagnose and manage PN, which is why the affected patients often wait many years for the correct diagnosis and treatment.

## WNIOSKI

1. Wstępne rozpoznanie neuralgii nerwu sromowego można postawić na podstawie wnikliwego wywiadu oraz po wykonaniu diagnostyki wykluczeniowej.
2. Leczenie pacjentów z neuralgią nerwu sromowego jest trudne, najczęściej wieloletnie, obejmuje zabiegi fizjoterapeutyczne i w sporadycznych sytuacjach leczenie operacyjne.
3. Niewiele jest ośrodków zajmujących się diagnostyką i leczeniem pacjentów z neuralgią nerwu sromowego, dlatego też pacjenci z tą chorobą często przez wiele lat oczekują na właściwą diagnozę i leczenie.

### Konflikt interesów Conflict of interest

Brak konfliktu interesów  
None

### Adres do korespondencji Correspondence

\*Paulina Malinowska  
Warszawski Ośrodek Proktologii  
Szpital św. Elżbiety  
ul. Goszczyńskiego 1, 02-616 Warszawa  
tel. 501-730-258  
email:  
paulina.malinowska-torbicz@szpitalse.pl

### nadesłano/submitted:

17.07.2024

### zaakceptowano do druku/accepted:

07.08.2024

### Piśmiennictwo/References

1. Hibner M, Desai N, Robertson LJ, Nour M: Pudendal neuralgia. *J Minim Invasive Gynecol* 2010; 17(2): 148-153.
2. Kaur J, Leslie SW, Singh P: Pudendal Nerve Entrapment Syndrome. 2023 Aug 21. [In:] StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2024 Jan-. PMID: 31334992.
3. Bochenek A, Reicher M: Anatomia człowieka. Tom II, V. Wyd. V. Wydawnictwo Lekarskie PZWL, Warszawa 2010.
4. Labat JJ, Riant T, Robert R et al.: Diagnostic criteria for pudendal neuralgia by pudendal nerve entrapment (Nantes criteria). *Neurourol Urodyn* 2008; 27(4): 306-310.
5. Marcus-Braun N, Bourret A, von Theobald P: Persistent pelvic pain following transvaginal mesh surgery: a cause for mesh removal. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2012; 162(2): 224-228.
6. Ramsden CE, McDaniel MC, Harmon RL et al.: Pudendal nerve entrapment as source of intractable perineal pain. *Am J Phys Med Rehabil* 2003; 82(6): 479-484.
7. Lien KC, Morgan DM, Delancey JO, Ashton-Miller JA: Pudendal nerve stretch during vaginal birth: a 3D computer simulation. *Am J Obstet Gynecol* 2005; 192(5): 1669-1676.
8. Howard EJ: Postherpetic pudendal neuralgia. *JAMA* 1985; 253(15): 2196.
9. Elahi F, Callahan D, Greenlee J, Dann TL: Pudendal entrapment neuropathy: a rare complication of pelvic radiation therapy. *Pain Physician* 2013; 16(6): E793-797.
10. Pinna Pintor M, Zara GP, Falletto E et al.: Pudendal neuropathy in diabetic patients with faecal incontinence. *Int J Colorectal Dis* 1994; 9(2): 105-109.
11. Czekaj A: Szkolenie u dr. Renauda Bollensa w Tournai, w Belgii. Operacja laparoskopowego uwolnienia uwięźniętego nerwu sromowego – czyżby wielkimi krokami zbliżała się rewolucja w urologii, jaką do tej pory znaliśmy? *Przegl Urolog* 2023; 2: 138.