

Correlati comportamentali e neurofisiologici della sindrome della *Body Integrity*

Dysphoria (BID): una mini review della letteratura

Behavioral and neurophysiological correlates of Body Integrity Dysphoria (BID):

a mini review of the literature

Gerardo Salvato^{1,2,3}, Martina Gandola^{1,2,3}, Giulio Palmas², Elena Sacilotto¹, Alessandra Bollani^{1,2},
Gabriella Bottini^{1,2,3}

1. Department of Brain and Behavioral Sciences, University of Pavia, Pavia, Italy

2. Cognitive Neuropsychology Centre, ASST Grande Ospedale Metropolitano Niguarda, Milan, Italy

3. NeuroMi, Milan Center for Neuroscience, Milan, Italy

Abstract

La *Body Identity Dysphoria* (BID) è una condizione patologica a causa della quale un individuo, in assenza di malattie neurologiche o psichiatriche, desidera una disabilità fisica (come, ad esempio, l'amputazione di un arto o la paralisi). Originariamente studiata soltanto da un punto di vista psichiatrico, attualmente viene indagata anche da un punto di vista neurologico. Nel presente lavoro forniamo una panoramica aggiornata sulla sindrome BID, in termini di manifestazioni cliniche, correlati comportamentali, fisiologici e neurali. I risultati generali mettono in luce la complessità di tale sindrome ed evidenziano l'importanza di un approccio integrato per la definizione e l'intervento.

Parole chiave: BID, Body Identity Dysphoria, Xenomelia, Amputazione degli Arti, Rappresentazione del corpo

Autore responsabile per la corrispondenza: Prof.ssa Gabriella Bottini, Department of Brain and Behavioral Sciences, University of Pavia, E-mail: g.bottini@unipv.it

Abstract

Body Identity Dysphoria (BID) is a pathological condition due to which a subject, in the absence of neurological or psychiatric illness, desires a disability of the body (such as limb amputation or paralysis). Originally studied only from a psychiatric point of view, it is now also investigated from a neurological point of view. In this paper, we provide a more up-to-date overview of the syndrome's definition, clinical manifestations, behavioural, physiological, and neural correlates. The overall results underline the variety and complexity of the BID syndrome and highlight the importance of an integrated approach for its understanding and future management.

Keywords: BID, Body Identity Dysphoria, Xenomelia, Limbs Amputation, Body representation.

Inquadramento clinico

La condizione clinica definita con il termine *Body Integrity Dysphoria* (BID) è una sindrome neuropsichiatrica che comprende diverse manifestazioni caratterizzate da una insoddisfazione pervasiva per la morfologia o della funzionalità del proprio corpo in individui non psicotici (Brugger et al., 2016). Nella sua forma più comunemente studiata, un arto sano dal punto di vista anatomico e sensorimotorio può essere vissuto come se fosse estraneo, inducendo l'individuo a desiderarne l'amputazione. Come conseguenza di questo desiderio ossessivo, i soggetti affetti da BID spesso si rivolgono a chirurghi. Paradossalmente, tale amputazione permetterebbe agli individui che soffrono di BID di "sentirsi più completi" (First, 2005).

L'eziologia di questa condizione è tuttora sconosciuta e nell'arco degli ultimi decenni sono state avanzate diverse ipotesi, che riflettono l'eterogeneità della stessa. Tale sindrome è stata inizialmente concettualizzata come un disturbo parafilico (apotemnofilia, Everaerd, 1983; Money et al., 1977). Nel 2005, First (2005) ha enfatizzato alcune somiglianze tra questa condizione ed il Disturbo dell'Identità di Genere (*Body Identity Disorder*) (Lawrence, 2006), introducendo così il termine *Body Integrity Identity Disorder* (BIID). L'autore ha suggerito che il disturbo possa essere concettualizzato come una disfunzione nello sviluppo del proprio fondamentale senso di identità (corporea) (First, 2005). Più tardi, McGeoch e collaboratori (2011) hanno proposto che il desiderio dell'amputazione derivi da una distorsione dell'immagine corporea durante le prime fasi dello sviluppo, sottesa da una disfunzione del lobo parietale dell'emisfero destro, introducendo il termine "Xenomelia", dal greco *xenos* = straniero e *melos* = arto.

Nel 2018, questa condizione è stata inclusa nell'International Classification of Disease for Mortality and Morbidity Statistics, undicesima revisione (ICD-11; <https://icd.who.int/browse11/l-m/en>, BID; code 6C21) come *Body Integrity Dysphoria* con la seguente definizione: "La *Body Integrity Dysphoria* è caratterizzata da un intenso e persistente desiderio di diventare in maniera importante fisicamente disabili (per esempio con amputazioni di arti, paraplegia, o cecità), con esordio dalla prima adolescenza accompagnato da persistente disagio, o intensi sentimenti d'inadeguatezza rispetto all'attuale immagine e forma corporea. Il desiderio di diventare fisicamente disabili può comportare conseguenze dannose, come evidenziato sia dalla preoccupazione per il desiderio (compreso il tempo impiegato a simulare di essere disabili) che interferisce significativamente con la produttività, con le attività ricreative e sociali (ad esempio, la persona non vuole avere delle relazioni strette perché a quel punto risulterebbe difficile

simulare), sia che dai tentativi (autolesivi) di diventare disabili, che portano la persona a mettere in serio pericolo la propria vita e la propria salute. Il disturbo non può essere meglio spiegato da altri disturbi mentali, comportamentali o del neurosviluppo, da patologie del sistema nervoso, da un'altra condizione medica, o dalla simulazione”.

In questa breve revisione della letteratura presenteremo i risultati più rilevanti prodotti sino a ora da diversi gruppi di ricerca nel mondo che lavorano per meglio comprendere gli aspetti neurobiologici e psicologici sottostanti la sindrome della BID. Nei paragrafi che seguono illustreremo le più tipiche manifestazioni cliniche, alcune implicazioni cognitive e i correlati neurofisiologici.

Fenomenologia e trattamento

Diversi studi hanno cercato di delineare la fenomenologia della sindrome della BID e dai report dei soggetti affetti si evincono alcune caratteristiche principali. La sindrome insorge nell'età dello sviluppo e un'esacerbazione della condizione si osserva intorno ai 30-50 anni, quando il desiderio diviene tale da indurre la persona a mettere in atto comportamenti autolesivi, come l'autoamputazione (Sedda & Bottini, 2014). Gli individui affetti dalla BID spesso fingono lo stato di amputazione, ad esempio muovendosi su una sedia a rotelle, usando stampelle o legando l'arto colpito in modo da ripiegarlo su se stesso (First & Fisher, 2012). Oltre alla variante “amputazione”, altre manifestazioni della BID sono state descritte. Nello specifico, alcuni individui mirano a raggiungere condizioni di disabilità gravi come la paralisi, la cecità, la sordità, l'incontinenza, la castrazione e una vasta gamma di alterazioni neurologiche (Johnson et al., 2011; Brugger et al., 2013).

La prevalenza del disturbo nella popolazione generale è sconosciuta. Tuttavia, sebbene manchino ancora studi epidemiologici e clinici sistematici, è stato riscontrato che esso è più comune negli uomini rispetto alle donne e colpisce prevalentemente un solo lato del corpo, in genere l'arto inferiore sinistro (Brugger et al., 2016). I soggetti affetti da BID possono anche manifestare attrazione erotica nei confronti di persone prive di un arto (Ramachandran et al., 2009) ed eccitazione sessuale per la propria immagine di sé come amputato (Blom et al., 2017).

Ad oggi purtroppo non è stato individuato alcun trattamento efficace nella riduzione della sintomatologia. I soli trattamenti psicoterapeutici si sono dimostrati inefficaci o hanno prodotto effetti controversi (Blom et al., 2012). In un'indagine online condotta su 54 persone affette dalla BID, Blom e collaboratori (2012) hanno riscontrato che la psicoterapia era spesso di supporto e che farmaci antidepressivi mitigavano solo parzialmente i sintomi depressivi legati alla BID. Altri autori hanno testato l'efficacia di manipolazioni fisiologiche del sistema nervoso centrale, come la stimolazione calorica vestibolare. Lenggenhager e colleghi (2014), hanno somministrato il trattamento a 13 individui affetti dalla sindrome: nemmeno tale manipolazione è stata in grado di modulare i sintomi della BID; trattamento che invece risulta efficace per la (temporanea) risoluzione di altri disturbi della rappresentazione del corpo (ad esempio, somatoparafrenia, Salvato et al., 2018).

Correlati comportamentali

La sintomatologia clinica presentata dai soggetti con BID evoca possibili alterazioni cognitive del modo in cui queste persone rappresentano il loro corpo e della sensazione di appartenenza degli arti (*limb ownership*). Infatti, questi sono gli ambiti più esplorati da diversi neuroscienziati, che attraverso paradigmi comportamentali specifici hanno effettuato studi su piccoli campioni di popolazioni affette dalla BID. I risultati non sono sempre univoci, riflettendo la complessità della patologia.

Ad esempio, alcuni autori hanno investigato il costrutto del *body schema*, la rappresentazione sensorimotoria del corpo che guida l'azione, che sembrerebbe essere integra in soggetti con BID. Nello specifico, Stone e collaboratori (2019) hanno confrontato la prestazione al compito di rotazione mentale di parti del corpo tra soggetti con BID, pazienti con amputazione e soggetti sani. Ai partecipanti veniva richiesto di giudicare la lateralità di immagini di piedi destri e sinistri presentati sullo schermo in orientamenti diversi (ad esempio, 90°, 180°). Gli autori avevano ipotizzato che i partecipanti con BID fossero più lenti nel ruotare mentalmente le immagini corrispondenti alle loro gambe affette rispetto a soggetti con amputazione dell'arto inferiore e ai partecipanti sani. Contrariamente alle loro ipotesi, i risultati non hanno evidenziato differenze significative tra le prestazioni dei diversi gruppi, suggerendo che soggetti con BID presentano un *body schema* integro.

In un altro studio, Macaudo e collaboratori (2017) hanno esplorato gli aspetti più impliciti delle rappresentazioni del corpo, ossia se l'insolita preferenza per i corpi amputati nelle persone con BID fosse presente anche a livello implicito. Gli autori hanno somministrato una versione modificata dell'Implicit Association Test (IAT), un test largamente usato che valuta le associazioni semantiche implicite, a un gruppo di 34 soggetti con BID, un gruppo di 35 soggetti con amputazione e un gruppo di 35 soggetti sani. I risultati hanno dimostrato che gli individui con BID manifestano una preferenza implicita ed esplicita per i corpi amputati più forte rispetto al gruppo di controllo con arti normali e a un gruppo di soggetti con amputazione. Tali dati sono indicativi di come atteggiamenti profondamente radicati riguardo a un aspetto corporeo socialmente normativo possano essere influenzati da un'esperienza alterata dello sviluppo del sé corporeo.

Quella delle rappresentazioni del corpo non è l'unica funzione cognitiva esplorata nei soggetti con BID: alcuni autori hanno investigato le possibili alterazioni di altre funzioni cognitive, dalla percezione delle emozioni alla percezione spaziale. Ad esempio, Bottini e collaboratori (2015) hanno esplorato la sfera emotiva, ossia il riconoscimento delle emozioni facciali e la risposta a immagini che suscitavano disgusto in un campione di 7 soggetti con BID mediante un task computerizzato. La prestazione dei soggetti con BID è stata confrontata con quella di un gruppo di controllo attraverso un approccio statistico specifico per gli studi del caso singolo. Ai partecipanti è stato somministrato il compito di riconoscimento di espressioni facciali (*Facial Emotion Recognition task*; Ekman e Friesen 1976), in cui vengono presentate fotografie di volti di attori che esprimono emozioni di base. Inoltre, a tutti i partecipanti è stato somministrato un *Picture Rating Task*, nel quale ai soggetti veniva richiesto di quantificare l'emozione di disgusto evocata da 24 immagini di cui quattro relative ad alimenti, quattro a prodotti per il corpo, due relativi ad animali, due a contaminazioni, quattro raffiguranti cadaveri, quattro

relative a violazioni del corpo (ad esempio, amputazione) e quattro immagini relative all'igiene. Il test si componeva anche di altre 12 immagini relative alle altre categorie emotive (stimoli di controllo). I risultati non hanno mostrato differenze tra soggetti con BID e soggetti di controllo nelle competenze di decodifica delle emozioni a partire da espressioni facciali. Invece, i dati hanno evidenziato che i 5 soggetti maschi che desideravano l'amputazione dell'arto inferiore presentavano ridotti livelli di disgusto per le immagini di arti amputati rispetto agli altri due soggetti con BID e ai controlli. Questi risultati dimostrano che il profilo emozionale dei soggetti con BID è sovrapponibile a quello dei soggetti di controllo ad eccezione del disgusto specificamente legato all'amputazione. Inoltre, la diversa prestazione nel campione dei soggetti con BID suggerisce che questa popolazione non sia omogenea nelle sue manifestazioni cliniche.

Un altro ambito cognitivo esplorato è quello della percezione dello spazio e, nello specifico, dello spazio peripersonale. Stone e collaboratori (2020) hanno condotto uno studio il cui obiettivo era quello di indagare la dimensione dello spazio peripersonale dell'arto inferiore "affetto" in tre persone con BID e confrontarlo con quello di un gruppo di 16 soggetti di controllo. A tal fine, gli autori si sono avvalsi dell'utilizzo del *Visuo-tactile Interaction Task*, un paradigma di integrazione visuo-tattile che consiste nella somministrazione di uno stimolo tattile su una parte del corpo che veniva predetto nel 50% dei casi dall'avvicinamento di un puntino luminoso verso quella parte del corpo. In questo caso, il paradigma veniva somministrato sulle dita dei due piedi e ai partecipanti veniva chiesto di premere un pulsante quando percepivano lo stimolo tattile. La dimensione dello spazio peripersonale individuale veniva calcolata esaminando la relazione tra la vicinanza dello stimolo visivo e i tempi di reazione agli stimoli tattili. L'ipotesi di partenza era che le persone con BID avessero uno spazio peripersonale dell'arto affetto di dimensioni ridotte, rispetto allo spazio peripersonale caratterizzante il gruppo di controllo o il loro arto inferiore non interessato. Tuttavia, da tale studio è emerso che lo spazio peripersonale che coinvolge l'arto affetto nei soggetti con BID non differisce da quello dei soggetti sani.

Correlati fisiologici

A sottolineare la specificità del desiderio di amputazione, la sindrome della BID ha delle implicazioni anche sul sistema nervoso autonomo ed i suoi segnali, come la conduttanza cutanea e la temperatura. Infatti, se l'arto affetto dal desiderio di amputazione non è correttamente inscritto nella rappresentazione corporea ci si potrebbero aspettare che anche le risposte fisiologiche relative allo stesso siano differenti e/o alterate. Romano e colleghi (2015) hanno esplorato il senso di appartenenza implicito per l'arto affetto da amputazione con un paradigma assai elegante. In questo studio, lo sperimentatore appoggiava o toccava l'arto affetto delle persone con BID e l'arto sano dei soggetti di controllo con un bastoncino di cotone o con un ago. Durante la manovra di avvicinamento e di tocco, veniva misurata la risposta cutanea dei soggetti. Nei soggetti sani, quando lo sperimentatore appoggiava e toccava uno degli arti con l'ago, si assisteva ad una risposta galvanica di protezione. Gli autori hanno invece riscontrato nei soggetti con BID una ridotta risposta anticipatoria agli stimoli che si avvicinavano, ma non toccavano, l'arto "indesiderato". Al contrario, gli stimoli che entravano in contatto con la parte del corpo non accettata

inducevano una risposta cutanea più forte rispetto a quelli che entravano in contatto con le parti sane. Gli autori hanno quindi suggerito che l'arto indesiderato potrebbe non essere correttamente inscritto in una rappresentazione corporea di alto livello, e che "tale sottorappresentazione potrebbe indurre una scarsa attenzione per qualsiasi segnale proveniente dall'ambiente e diretto all'arto percepito come esterno alla rappresentazione corporea" (p. 146, Romano, Sedda, Brugger, & Bottini, 2015).

Più di recente, Salvato e colleghi (2022) hanno studiato se l'alterazione del senso di appartenenza dell'arto colpito dal desiderio di amputazione nei soggetti con BID potesse essere correlato ad alterazioni della temperatura degli arti interessati. Gli autori hanno testato un campione composto da 7 uomini con BID che desideravano l'amputazione di una delle gambe, confrontati con un campione di soggetti sani equiparati per età, genere, peso e altezza. Durante lo studio, ai soggetti veniva richiesto di pensare ad uno dei propri arti (braccio destro, braccio sinistro, gamba destra, gamba sinistra) per 30 secondi ad occhi chiusi. Durante il compito la temperatura della pelle veniva registrata attraverso una termocamera. I risultati hanno mostrato che quando i soggetti con BID pensavano sia alla propria gamba indesiderata che alla propria gamba "accettata" presentavano un abbassamento simultaneo della temperatura in maniera simmetrica in entrambe le gambe. Gli autori hanno interpretato questo dato come segnale di una rappresentazione corporea dei soggetti con BID più frammentata di quanto si pensasse, andando oltre la "semplice" alterazione della rappresentazione dell'arto specifico. Infatti, studi in letteratura dimostrano come la diminuzione del senso di appartenenza per un arto, ottenuto attraverso paradigmi di illusione multisensoriale, sia accompagnato dall'abbassamento della temperatura corporea bilaterale (Crivelli et al., 2021).

Correlati neurali

La sindrome della BID è stata esplorata anche dal punto di vista neurale e le evidenze accumulate hanno suggerito una possibile origine neurologica. Ad oggi, gli studi di neuroimmagine sono ancora pochi e le tecniche utilizzate sono miste: alcuni studi hanno esplorato alterazioni strutturali della sostanza grigia e connettività tra aree cerebrali, altri hanno esplorato possibili alterazioni neurofunzionali durante l'esecuzione di compiti sensorimotori o compiti cognitivi. Di seguito, riportiamo gli studi più significativi ed attuali sul tema.

Alterazioni dell'attività neurofunzionale

La prima evidenza di alterazioni neurofunzionali arriva da McGeoch e collaboratori (2011) che hanno condotto uno studio di Magnetoencefalografia (MEG) su quattro individui affetti dalla condizione che desideravano l'amputazione della gamba destra o sinistra. I partecipanti ricevevano una stimolazione tattile dei siti al di sopra e al di sotto della linea di demarcazione dell'amputazione desiderata. Gli autori hanno riscontrato una riduzione significativa dell'attività del lobulo parietale superiore (SPL) destro quando hanno confrontato le risposte somatosensoriali degli individui con BID per la gamba affetta con quelle della gamba non affetta e con quelle dei partecipanti di controllo.

In un altro studio, Oddo-Sommerfeld e colleghi (2018) hanno indagato la possibile modulazione dell'attività delle aree parietali all'esposizione di fotografie che mostravano la configurazione corporea desiderata (amputazione). Gli autori hanno testato 12 soggetti con BID e un gruppo di controllo acquisendo dati di *functional Magnetic Resonance Imaging* (fMRI), mentre i soggetti guardavano immagini del proprio corpo reale e virtualmente amputato. I risultati hanno dimostrato che l'attività cerebrale registrata durante la visione dell'immagine del proprio corpo virtualmente amputato prediceva l'appartenenza a un gruppo con un'accuratezza, una sensibilità e una specificità superiore all'80%. Tra le regioni cerebrali maggiormente predittive vi erano il lobulo parietale superiore (SPL) di destra, il lobulo parietale inferiore (IPL) bilaterale, il nucleo caudato bilaterale, così come regioni occipitali.

In un recentissimo studio pubblicato nel 2021, Gandola e collaboratori hanno misurato le attivazioni cerebrali mediante fMRI durante stimolazione somatosensoriale e durante un compito motorio dei quattro arti in 10 individui con BID e 14 soggetti di controllo. Tutti i soggetti con BID desideravano l'amputazione della gamba sinistra. Nel dettaglio, l'esperimento fMRI prevedeva un compito di stimolazione tattile delle mani e dei piedi, e un compito di esecuzione di movimento di mani e piedi. Nel compito di stimolazione tattile, uno sperimentatore toccava le dita delle mani e dei piedi in ordine controbilanciato. Nel compito di esecuzione del movimento delle mani, ai soggetti veniva invece richiesto di muovere le dita della mano destra e sinistra, toccando con il pollice le altre dita (pollice-indice; pollice-medio; ecc.). Infine, nel compito di esecuzione di movimenti con i piedi, ai soggetti veniva richiesto di effettuare un movimento di estensione e di abduzione. Ogni condizione di stimolazione tattile e di movimento veniva alternata alla condizione di riposo (*rest*) seguendo un disegno sperimentale a blocchi. I risultati hanno mostrato nei soggetti con BID una ridotta attivazione cerebrale del lobulo parietale superiore (SPL) destro durante la stimolazione somatosensoriale della gamba "indesiderata". Il compito motorio che coinvolgeva il piede dell'arto indesiderato invece ha rivelato una minore attivazione del lobulo paracentrale destro nei soggetti con BID. Infine, per la sola stimolazione somatosensoriale, è stata riscontrata una robusta riduzione dell'attivazione delle aree somatosensoriali (SII) bilateralmente, indipendentemente dalla parte del corpo stimolata. Gli autori hanno suggerito quindi che la BID è associata a un'alterata integrazione dei segnali somatosensoriali e, in misura minore, di quelli motori, coinvolgendo mappe corticali arto-specifiche e regioni cerebrali in cui si realizza una prima integrazione dei segnali corporei.

Alterazioni della densità della sostanza grigia e della connettività

La prima evidenza di alterazione della densità della sostanza grigia è stata dimostrata da Hilti e collaboratori (2013), in una ricerca che ha coinvolto 13 soggetti con desiderio di amputazione per le gambe (otto della gamba sinistra, due della gamba destra e tre bilaterali) e 13 controlli. Lo studio ha riscontrato differenze nello spessore e nella superficie corticale in regioni dell'emisfero destro, come il lobulo parietale superiore (SPL), il lobulo parietale inferiore (IPL), le cortecce somatosensoriali primaria (SI) e secondaria (SII) e la corteccia insulare anteriore. Anche regioni dell'emisfero sinistro presentavano alterazioni della sostanza grigia, come IPL e SII (superficie corticale più estesa). In uno studio successivo,

Bloom e collaboratori (2016) hanno fornito ulteriori evidenze di alterazioni strutturali in un gruppo di 8 soggetti con BID e 24 persone sane. Tali alterazioni consistevano in una minore densità della sostanza grigia della corteccia premotoria dorsale e ventrale di sinistra e una maggiore densità della sostanza grigia nel cervelletto (lobulo VIIa).

Per fare maggiore chiarezza sui correlati neurali della BID, Setta e collaboratori (2020) hanno utilizzato un approccio multimodale strutturale (*Voxel Based Morphometry* - VBM) e funzionale (*resting state fMRI*) prendendo in esame il campione più ampio di soggetti con BID mai testato sino ad oggi. Lo studio multicentrico ha coinvolto 16 uomini con BID che desideravano l'amputazione della gamba sinistra e un gruppo di soggetti sani. I risultati hanno mostrato che l'area somatosensoriale primaria della gamba "indesiderata" e la regione centrale per la rappresentazione cosciente della forma e dimensione del corpo (il lobulo parietale superiore di destra - SPL) erano meno connesse dal punto di vista funzionale con il resto delle aree cerebrali. Gli autori hanno riscontrato anche atrofia corticale della corteccia premotoria di sinistra e del SPL di destra. Inoltre, maggiore era l'atrofia del SPL di destra, maggiore era il desiderio di amputazione, e più frequenti erano i comportamenti di simulazione di disabilità dei partecipanti. I risultati di questo studio supportano l'ipotesi secondo la quale la manifestazione clinica della BID potrebbe derivare da una discrepanza tra le proiezioni conservate degli *input* somatosensoriali dall'arto alle rispettive aree corticali primarie e una rappresentazione alterata del corpo al più alto livello di integrazione, ovvero l'immagine corporea.

Per meglio delineare il quadro sui correlati neurali della sindrome della BID, Saetta e collaboratori (2022) hanno preso in esame lo stesso gruppo di partecipanti dello studio sopracitato, analizzando la connettività strutturale della sostanza bianca (ovvero le connessioni anatomiche tra regioni cerebrali). Gli autori hanno quantificato la *fractional anisotropy* (FA) come misura della connettività strutturale derivata da acquisizioni di *Diffusor Tensor Imaging*. I risultati hanno mostrato una connettività strutturale ridotta: a) del lobulo parietale superiore destro (SPL) con il cuneo, il giro occipitale superiore e il giro cingolato posteriore; b) della pars orbitalis del giro frontale medio destro con il putamen; e c) del giro temporale medio sinistro con la pars triangularis del giro frontale inferiore di sinistra. Al contrario, è stata riscontrata anche una connettività strutturale aumentata tra il lobulo paracentrale di destra e il nucleo caudato di destra. Questi dati suggeriscono che la BID potrebbe riflettere molteplici alterazioni di reti neurali distinte ma interconnesse che sottendono la rappresentazione cerebrale del corpo (ad esempio, la rappresentazione degli arti, l'integrazione di stimoli interni ed esterni al corpo, e l'immagine corporea), e funzioni emotive e sociali ad essa associate, nonché del sistema di ricompensa.

Conclusioni e considerazioni generali

In questa breve revisione della letteratura abbiamo riportato gli studi più attuali sulla sindrome della BID. Tale sindrome è caratterizzata da un quadro clinico assai complesso. Nonostante la variante "amputazione" sia quella più studiata, i risultati talvolta discordanti presenti in letteratura, suggeriscono la necessità di uno studio più ampio e comprensivo per meglio dettagliare le manifestazioni cliniche nel loro insieme. I risultati degli studi comportamentali e fisiologici suggeriscono che la sindrome sia

caratterizzata da una rappresentazione del corpo molto più disgregata di quello che ci si possa aspettare, che a volte non è arto specifica. Parallelamente, anche gli studi di neuroimmagine cominciano a definire un quadro di alterazione di integrazione multisensoriale più generale. Purtroppo, la maggioranza degli studi coinvolge campioni assai ristretti, fattore che però è del tutto in linea con la rarità della patologia. Per ampliare il numero dei casi, studi futuri potranno vedere il coinvolgimento di più centri di arruolamento, nei quali i soggetti affetti da BID potranno essere sottoposti a protocolli di ricerca condivisi e sistematizzati. Inoltre, l'adozione di un approccio più interdisciplinare potrebbe fornire maggiori informazioni sulla sindrome, considerandone diversi aspetti, tra cui fattori biologici, psicologici e sociali. Infatti, solo una visione integrata, che includa il cervello, il comportamento e la società come livelli di analisi ugualmente importanti, porterà a un ulteriore progresso essenziale nella comprensione di un disturbo come la sindrome da BID.

Una questione cruciale rimane irrisolta: al momento non vi è trattamento efficace. A tale scopo sono necessarie ulteriori ricerche. Un ambito di sviluppo interessante è rappresentato dall'uso di nuove tecnologie. Sulla base delle recenti scoperte relative ai correlati neurali (funzionali e strutturali) della sindrome della BID, Chakraborty e collaboratori (2021) hanno proposto l'idea dell'utilizzo di approcci tecnologici attraverso l'impiego della *brain-computer interface* e il *neurofeedback* che potrebbero agire sui pattern di alterazione cerebrale riscontrati, promuovendo la re-inscrizione degli arti indesiderati nella rappresentazione del corpo, attenuando così lo stato di stress pervasivo che questi individui cercano di fronteggiare giorno dopo giorno.

Bibliografia

- Blom, R.M., Hennekam, R.C., & Denys, D. (2012). Body Integrity Identity Disorder. *PLoS ONE*, 7(4), e34702.
- Blom, R. M., van der Wal, S. J., Vulink, N. C., & Denys, D. (2017). Role of Sexuality in Body Integrity Identity Disorder (BIID): A Cross-Sectional Internet-Based Survey Study. *The Journal of Sexual Medicine*, 14(8), 1028-1035.
- Blom, R. M., van Wingen, G. A., van der Wal, S. J., Luigjes, J., van Dijk, M. T., Scholte, H. S., & Denys, D. (2016). The desire for amputation or paralysis: Evidence for structural brain anomalies in body integrity identity disorder (BIID). *PLoS One*, 11(11), e 0165789
- Bottini, G., Brugger, P., & Sedda, A. (2015) Is the desire for amputation related to disturbed emotion processing? A multiple case study analysis in BIID. *Neurocase*, 21(3), 394-402.
- Brugger, P., Christen, M., Jellestad, L., & Hänggi, J. (2016). Limb amputation and other disability desires as a medical condition. *The Lancet Psychiatry*, 3(12), 1176-1186.
- Brugger, P., Lenggenhager, B., & Giummarra, M. J. (2013). Xenomelia: a social neuroscience view of altered bodily self-consciousness. *Frontiers in Psychology*, 4, 204.
- Chakraborty, S., Saetta, G., Simon, C., Lenggenhager, B., & Ruddy, K. (2021). Could brain-computer interface be a new therapeutic approach for body integrity dysphoria? *Frontiers in Human Neuroscience*, 15, 699830.
- Crivelli, D., Polimeni, E., Crotti, D., Bottini, G., & Salvato, G. (2021). Bilateral skin temperature drop and warm sensibility decrease following modulation of body part ownership through mirror-box illusion. *Cortex*, 135, 49-60.
- Ekman, P., & Friesen, W. V. (1976). *Pictures of Facial Affect*. Palo Alto: Consulting Psychologist Press.
- Everaerd, W. (1983). A case of apotemnophilia: A handicap as sexual preference. *American Journal of Psychotherapy*, 37(2), 285-293.
- First, M. B. (2005). Desire for amputation of a limb: Paraphilia, psychosis, or a new type of identity disorder. *Psychological Medicine*, 35(6), 919-928.

- First, M. B., & Fisher, C. E. (2012). Body Integrity Identity Disorder: The Persistent Desire to Acquire a Physical Disability. *Psychopathology, 45*(1), 3-14.
- Gandola, M., Zapparoli, L., Saetta, G., Reverberi, C., Salvato, G., Squarza, S. A. C., Invernizzi, P., Sberna, M., Brugger, P., Bottini, G., & Paulesu, E. (2021). Brain abnormalities in individuals with a desire for a healthy limb amputation: somatosensory, motoric or both? A task-based fMRI verdict. *Brain Sciences, 11*(9), 1248.
- Hilti, L. M., Hänggi, J., Vitacco, D. A., Kraemer, B., Palla, A., Luechinger, R., Jäncke, L., & Brugger, P. (2013). The desire for healthy limb amputation: Structural brain correlates and clinical features of xenomelia. *Brain: A Journal of Neurology, 136*(1), 318-329.
- Johnson, A.J., Liew, S.L., & Aziz-Zadeh, L. (2011). Demographics, learning and imitation, and body schema in body integrity identity disorder. *Indiana university undergraduate journal of cognitive science, 6*, 8-15.
- Lawrence, A. A. (2006). Clinical and theoretical parallels between desire for limb amputation and gender identity disorder. *Archives of Sexual Behavior, 35*(3), 263-278.
- Lenggenhager, B., Hilti, L., Palla, A., Macaуда, G., & Brugger, P. (2014). Vestibular stimulation does not diminish the desire for amputation. *Cortex, 54*, 210-212.
- Macaуда, G., Bekrater-Bodmann, R., Brugger, P., & Lenggenhager, B. (2017). When less is more – Implicit preference for incomplete bodies in xenomelia. *Journal of Psychiatric Research, 84*, 249-255.
- McGeoch, P. D., Brang, D., Song, T., Lee, R. R., Huang, M., & Ramachandran, V. S. (2011). Xenomelia: A new right parietal lobe syndrome. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry, 82*(12), 1314-1319.
- Money, J., Jobaris, R., & Furth, G. (1977). Apotemnophilia: Two cases of self-demand amputation as a paraphilia. *The Journal of Sex Research, 13*(2), 115-125.
- Oddo-Sommerfeld, S., Hänggi, J., Coletta, L., Skoruppa, S., Thiel, A., & Stirn, A. V. (2018). Brain activity elicited by viewing pictures of the own virtually amputated body predicts xenomelia. *Neuropsychologia, 108*, 135-146.
- Ramachandran, V. S., Brang, D., McGeoch, P.D., & Rosar, W. (2009). Sexual and food preference in apotemnophilia and anorexia: interactions between 'beliefs' and 'needs' regulated by two-way connections between body image and limbic structures. *Perception, 38*(5), 775-777.
- Romano, D., Sedda, A., Brugger, P., & Bottini, G. (2015). Body ownership: When feeling and knowing diverge. *Consciousness and Cognition, 34*, 140-148.
- Saetta, G., Hänggi, J., Gandola, M., Zapparoli, L., Salvato, G., Berlingeri, M., Sberna, M., Paulesu, E., Bottini, G., & Brugger, P. (2020). Neural correlates of Body Integrity Dysphoria. *Current Biology, 30*(11), 2191-2195.
- Saetta, G., Ruddy, K., Zapparoli, L., Gandola, M., Salvato, G., Sberna, M., Bottini, G., Brugger, P., & Lenggenhager, B. (2022). White matter abnormalities in the amputation variant of body integrity dysphoria. *Cortex, 151*, 272-280.
- Salvato, G., Gandola, M., Veronelli, L., Berlingeri, M., Corbo, M., & Bottini, G. (2018). "The vestibular system, body temperature and sense of body ownership: a potential link? Insights from a single case study". *Physiology and Behavior, 194*, 522-526.
- Salvato, G., Zapparoli, L., Gandola, M., Sacilotto, E., Ludwig, N., Gargano, M., Fazia, T., Saetta, G., Brugger, P., Paulesu, E., & Bottini, G. (2022). Attention to body parts prompts thermoregulatory reactions in Body Integrity Dysphoria. *Cortex, 147*, 1-8.
- Sedda, A., & Bottini, G. (2014). Apotemnophilia, body integrity identity disorder or xenomelia? Psychiatric and neurologic etiologies face each other. *Neuropsychiatr Disease and Treatment, 10*, 1255.
- Stone, K. D., Dijkerman, H. C., Bekrater-Bodmann, R., & Keizer, A. (2019). Mental rotation of feet in individuals with Body Integrity Identity Disorder, lower-limb amputees, and normally-limbed controls. *PLoS ONE, 14*(8), e0221105.
- Stone, K. D., Kornblad, C. A. E., Engel, M. M., Dijkerman, H. C., Blom, R. M., Keizer, A. (2020) An Investigation of Lower Limb Representations Underlying Vision, Touch, and Proprioception in Body Integrity Identity Disorder. *Frontiers in Psychiatry, 11*, 15.