

• 经验与教训 •

夜间呻吟症(附 1 例报告)

Nocturnal groaning-catathrenia(A report of one case)

陈曦¹ 孙玉梅¹ 李进让¹

[关键词] 夜间呻吟症;中枢性睡眠呼吸暂停低通气综合征;多道睡眠监测

Key words catathrenia; central sleep apnea syndrome; polysomnography

[中图分类号] R338.63 [文献标志码] B [文章编号] 1001-1781(2013)24-1391-03

夜间呻吟症也称 Catathrenia 症,是一种罕见疾病,由 De Roeck 等(1983)首先报道,此后全球陆续有散在报道,至今报道病例数少于 50 例^[1]。随着对该病认识的不断深入,临床病例报道数逐渐增多,故有必要复习一下该病的病因、临床表现、诊断及治疗,以提高正确诊断率,避免误诊。

1 病例报告

患者,女,20 岁。因睡眠时发出异响 5 年就诊。近年来患者睡眠时反复发出呻吟声,且声响逐渐增强,严重影响同宿舍舍友休息,患者曾在外院行 PSG 监测,诊断为中枢性睡眠呼吸暂停低通气综合征。患者自幼有癫痫病史,长期口服抗癫痫药物治疗。查体:生命体征平稳,BMI 19.1 kg/m²,无咬颌畸形,鼻、咽、喉未见明显上气道阻塞情况,神经系统检查无病理体征。

给予 PSG 监测检查,入睡时间为 5 h 44 min,发生中枢性呼吸暂停事件 57 次,其中 REM 期 7 次,NREM 期 50 次,最长中枢性呼吸暂停时间 33.8 s,中枢性呼吸暂停指数 9.9 次/h,无阻塞性和混合性呼吸暂停事件,无低通气事件。最低血氧饱和度 88%,发生于 NREM 期,REM 期最低血氧饱和度 95%。患者睡眠时伴有明显的腿动现象,呼吸暂停事件前或期间往往伴有觉醒现象(图 1)。

根据 PSG 监测结果及夜间同步视频和音频监测(我们记录了视频和音频的资料),发现患者为一次深吸气后,出现长时间呼气,并同时发出有规律的呻吟声,因呼气时间很长,气流微弱,故口鼻气流往往捕捉不到呼吸,胸腹运动在此期间也停止,呼吸紊乱事件与呻吟声同步。因此,诊断为夜间呻吟症。根据文献多选用经鼻正压通气治疗(nCPAP)或配戴口腔矫治器^[2-5],本例试用 nCPAP 治疗,但患者不耐受并拒绝使用,故配制半合成口腔矫治器。患者后半夜配戴后,3 h 内出现 16 次呼吸停止事件,时长 3~6 s,呻吟声基本消失,呼吸紊乱事件明显减少(图 2)。

2 讨论

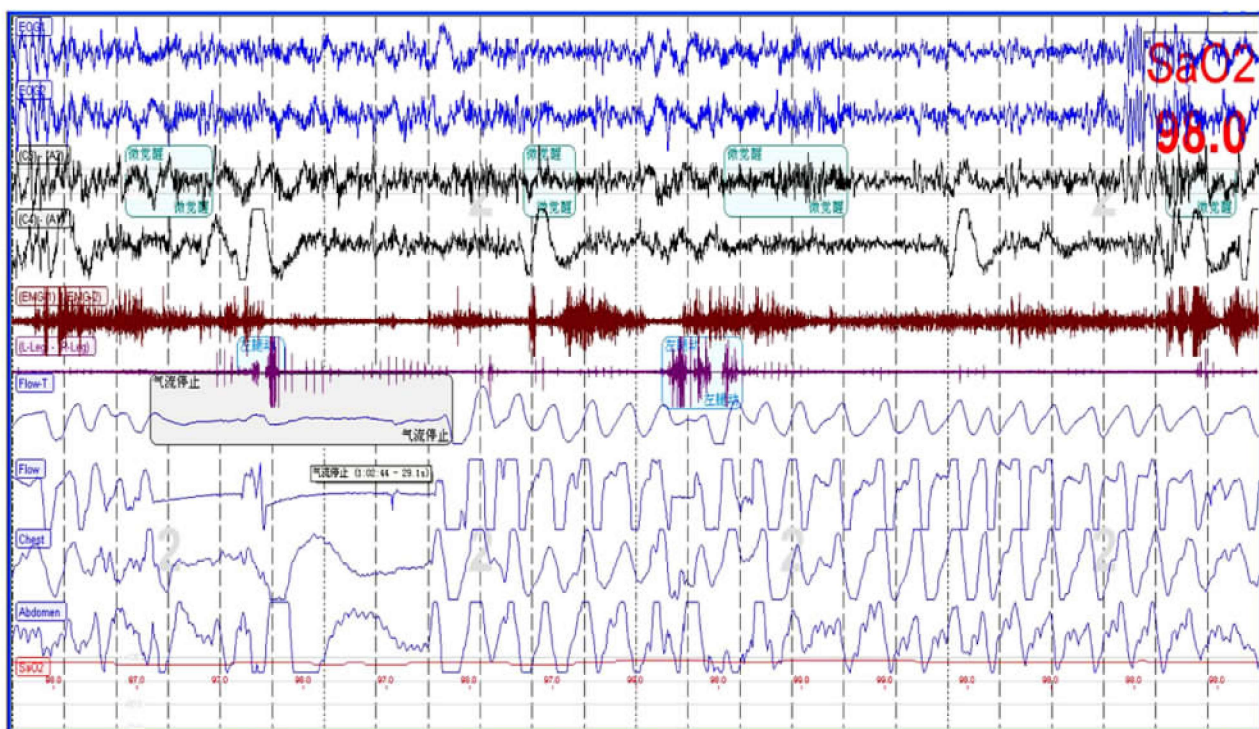
2.1 夜间呻吟症的声音特点

该病以其独特的夜间呻吟声而命名,也是诊断该病的依据之一。1967 年 Yanagihara 根据基频(fundamental frequency)、声强(intensity)、共振峰(formant)、微扰(perturbation)等参数,将嗓音分析结果分为几种类型^[6-7]:I 型为有规律的或周期性信号,无明显质量变化,其中任何一种频率调制或次谐波的能量低于基频的能量强度;II 型为次谐波有明显质量变化,能量接近于基频的能量强度;III 型为非周期信号,产生于声带以上区域。前两种声音产生于声带。为鉴别该病的呻吟声与鼾症的差别,Iriarte 等^[6]分析了一男一女 2 例夜间呻吟症患者,并与 4 例鼾症患者发出的鼾声相对比,发现夜间呻吟症患者呻吟声属于 II 型,而鼾症患者的鼾声属于 III 型。Koo 等^[7]研究也发现,夜间呻吟症患者呻吟声属于 I 型或 II 型,而鼾症患者鼾声属于 III 型。2 个实验结果都表明,该病患者发出的呻吟声起源于声带,无论声音强弱,都比较有规律,与鼾声有明显区别。

2.2 病因

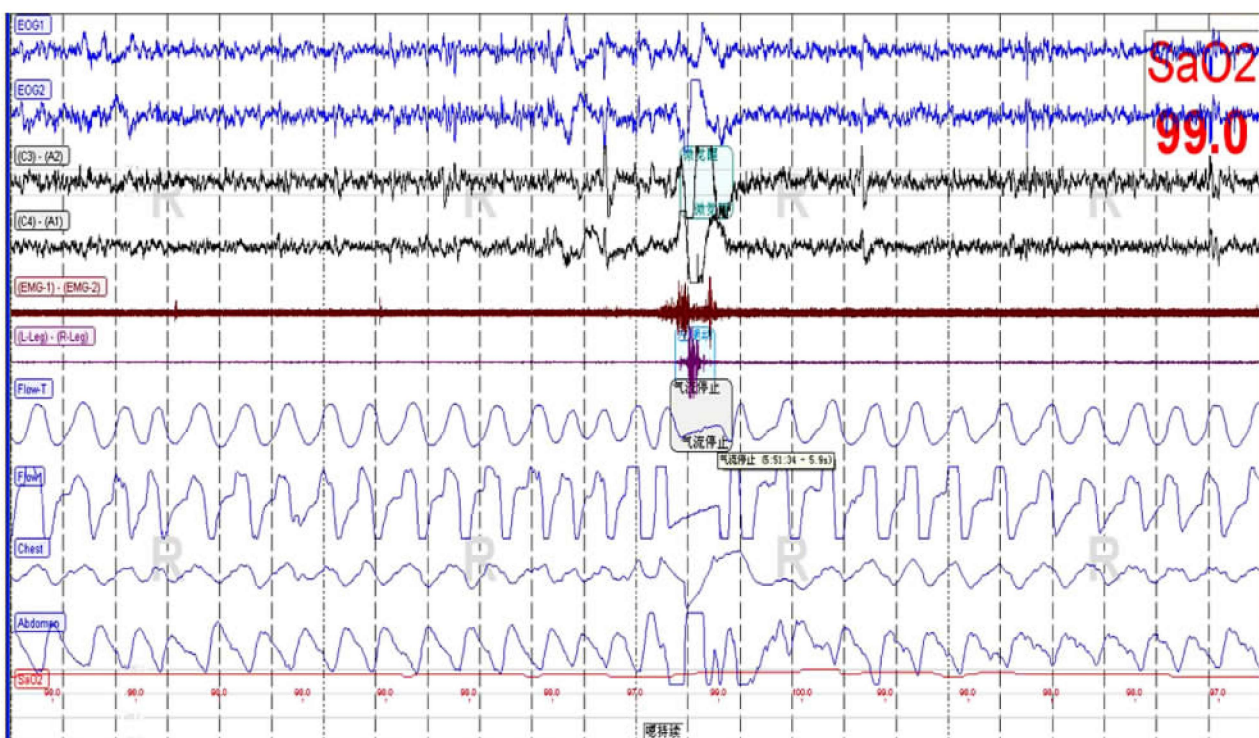
目前该病发病机制不明,Prihodova 等^[8]研究了 8 例患者,发现 63.3%的呼吸紊乱事件与微觉醒相关,这解释了有部分患者能意识到自己在发出呻吟声,睡眠时出现较多的腿动现象,并认为唤醒机制与该病有关。目前比较流行的解释是,人类呼吸中枢位于延髓,吸气和呼气由不同神经核团控制,而夜间呻吟症患者控制呼吸的神经核团功能不稳定,主要表现为睡眠时出现类似于胎儿的呼吸模式,即在通气运动不良的情况下,呼气时出现甲杓肌收缩,使声门部分关闭,以维持较高的肺容量,这样有利于延长气体交换。这种呼吸模式在早产的哺乳动物和有呼气呻吟的新生儿中较为常见。而呻吟声的产生类似于 Valsalva 动作,但进行呼气的努力度要低得多,气流通过部分阻塞的声门裂而产生声响^[9-10]。

¹ 海军总医院全军耳鼻咽喉头颈外科中心(北京,100048)
通信作者:李进让,E-mail:entlir@sina.com



示一次呼吸紊乱事件, 口鼻气流停止 29 s, 同时出现胸、腹活动消失, 气流停止前有一次微觉醒事件, 多次出现腿动现象。EOG: 眼电; C3, C4: 中央顶部脑电; EMG: 下颌肌电; L-Leg, R-Leg: 左、右腿导联; FlowT: 热敏口鼻气流; Flow: 压力口鼻气流; Chest: 胸导联; Abdomen: 腹导联。

图 1 典型的 PSG 呼吸紊乱事件图形



经口腔矫治器治疗后, 患者后半夜呼吸紊乱事件出现次数及时长都明显减少, 呻吟声也明显减轻。

图 2 配带口腔矫治器后 PSG 呼吸紊乱事件

2.3 临床表现

目前报道的患者年龄多集中在 30 岁以内的青

少年, 只有少数患者年龄大于 60 岁^[1-10], 男女都可发病, 其发病率有无差异尚不清楚, 多数患者白天

无明显头痛、倦怠、嗜睡、记忆力减退、注意力不集中、头昏等临床症状,典型症状为睡眠时反复出现一次深吸气后转为长时间呼气,并同时发出呻吟声,有时呻吟声较响,影响同屋的人。体格检查方面,该类患者 BMI 多数正常,耳鼻咽喉科专科检查(包括纤维喉镜检查),鼻腔、口咽、下咽及声带活动等方面一般无明显阳性发现,头颅 CT 或 MRI 无明显异常。PSG 监测表现为中枢性睡眠呼吸暂停低通气综合征特征,且呼吸紊乱事件前或期间多伴有微觉醒现象,如同步记录音频和视频,可发现典型的夜间呻吟症事件为口鼻气流停止同时,出现明显音频变化,暂停时间多持续 $(14.97 \pm 5.13)s^{[1,7]}$ 。

2.4 鉴别诊断

中枢性睡眠呼吸暂停低通气综合征:临床少见,常发生于老年人,男性多见,病因多与呼吸调节或肌肉功能缺陷、中枢性肺泡低通气综合征(原发、继发)、呼吸神经肌肉疾病、继发于高通气引起的低碳酸血症和低氧血症(肺充血、心肺疾病、心血管疾病、中枢神经系统疾患)等有关。患者 BMI 多正常,临床表现为失眠、嗜睡等症状,夜间打鼾多较轻,且有间歇性,PSG 检查与夜间呻吟症基本一致,同步行音频和视频检查有助于鉴别。

癫痫(epilepsy),是大脑神经元突发性异常放电,导致短暂的大脑功能障碍的一种慢性疾病。其中特发性癫痫综合征多在青春期前起病,除了癫痫,没有大脑结构性损伤和其他神经系统症状与体征的综合征,也可能出现睡眠时叫喊、肢体抽动等情况,但根据白天也可发作,多有短暂意识障碍,结合脑电图和 PSG 监测多可鉴别。

2.5 治疗

目前多采用 nCPAP 治疗,呻吟声多可消失,机制可能与气道内持续性的压力增高有关^[1-2]。对于不想长期采用 nCPAP 治疗的患者可考虑手术或配戴口腔矫治器治疗,如 Guilleminault 等^[5]报道,对 7 例患者行 nCPAP 治疗后呻吟消失,但其中 6 例患者不想继续配戴 nCPAP,4 例患者做了扁桃体和(或)腺样体切除术、咽成形术等相关手术,术后 3 例患者进一步配戴口腔矫治器治疗,随访 3 年以上,4 例患者均未再出现夜间呻吟现象。口腔矫治器治疗的机制目前不明确,可能与咽部肌肉被拉

紧、同时患者口唇闭合、干扰了异常呼吸有关。

总之,对于青少年患者,BMI 正常,白天无明显临床症状,夜间发出异常声音,PSG 表现为中枢性睡眠呼吸暂停低通气综合征的患者,应考虑该病的可能性,需进一步鉴别诊断,以免误诊误治。

参考文献

- [1] ABBASI A A, MORGENTHALER T I, SLOCUMB N L, et al. Nocturnal moaning and groaning-catathrenia or nocturnal vocalizations[J]. *Sleep Breath*, 2012, 16:367—373.
- [2] IRIARTE J, ALEGRE M, URRESTARAZU E, et al. Continuous positive airway pressure as treatment for catathrenia (nocturnal groaning) [J]. *Neurology*, 2006, 66: 609—610.
- [3] ORTEGA-ALBAS J J, DIAZ J R, SERRANO A L, et al. Continuous positive airway pressure as treatment for catathrenia (nocturnal groaning) [J]. *Neurology*, 2006, 67:1103—1103.
- [4] SONGU M, YILMAZ H, YUCETURK A V, et al. Effect of CPAP therapy on catathrenia and OSA: a case report and review of the literature [J]. *Sleep Breath*, 2008, 12: 401—405.
- [5] GUILLEMINAULT C, HAGEN C C, KHAJA A M. Catathrenia: parasomnia or uncommon feature of sleep disordered breathing[J]? *Sleep*, 2008, 31:132—139.
- [6] IRIARTE J, FERNANDEZ S, FERNANDEZ-ARRECHEA N, et al. Sound analysis of catathrenia: a vocal expiratory sound[J]. *Sleep Breath*, 2011, 15:229—235.
- [7] KOO D L, HONG S B, JOO E Y. Acoustic characteristic of catathrenia and snoring: different subtypes of catathrenia[J]. *Sleep Med*, 2012, 13:961—964.
- [8] PRIHODOVA I, SONKA K, KEMLINK D, et al. Arousals in nocturnal groaning[J]. *Sleep Med*, 2009, 10:1051—1055.
- [9] VETRUGNO R, LUGARESI E, PLAZZI G, et al. Catathrenia(nocturnal groaning): an abnormal respiratory pattern during sleep[J]. *Eur J Neurol*, 2007, 14: 1236—1243.
- [10] OREM J M, LOVERING A T, VIDRUK E H. Excitation of medullary respiratory neurons in REM sleep [J]. *Sleep*, 2005, 28:801—807.

(收稿日期:2013-03-01)