

睡眠呻吟症 3 例报告并文献复习

范玉兰, 王勇, 张蕾, 刘洋洋, 梁晶晶

吉林省吉林市人民医院神经内科, 吉林 吉林 132001

摘要: **目的** 探讨睡眠呻吟症的临床特点,提高对睡眠呻吟症的认识。**方法** 回顾分析吉林市人民医院神经内科 2017 年 2 月至 2019 年 12 月收治的 3 例睡眠呻吟症患者病例,并系统复习国内外相关文献。**结果** 3 例均少年发病,夜间发出呻吟声音,患者不知晓,均被他人发现,醒后无记忆,日间活动不受影响。多导睡眠脑电图发现呼吸相缓慢的酷似中枢性呼吸暂停的呼吸模式,成串出现,伴有胸腹运动消失,不伴有低氧血症和微觉醒,音频可闻及高调呻吟声音。1 例患者口腔矫正器治疗有效,其他 2 例拒绝治疗,1 年后随访无变化。**结论** 睡眠发出呻吟结合多导睡眠脑电图上述表现是诊断此病的金标准,应充分评估患者,个体化采取呼吸道持续正压通气(CPAP)、口腔矫正器、药物等治疗措施。

关键词: 睡眠呻吟; 慢性呼吸障碍性疾病; 临床特点; 多导睡眠脑电图

中图分类号: R741 **文献标识码:** B **文章编号:** 1674-8182(2021)10-1399-03

睡眠呻吟症也称为夜间呻吟、睡眠相关性呻吟。1983 年由 DeRoock^[1]等首先发现世界上第 1 例睡眠呻吟病例并公开发表,其特点是睡眠中呼气时经常发出呻吟声,感觉憋气,多见于快速动眼期(rapid eye movement, REM 期),特别是后半夜的 REM 期时段,也可发生在非快速动眼期(non-rapid eye movement, NREM 期)^[2]。因其发生在呼气时,与呼吸延长有关,睡眠障碍国际分类(International Classification of Sleep Disorders, ICSID)第 3 版将其归类于睡眠呼吸暂停中的孤立症状或正常变异^[3]。此病临床上非常少见,本文报告吉林市人民医院神经内科收治的 3 例睡眠呻吟症,结合文献复习,总结其发病机制、临床表现、多导睡眠脑电图(polysomnography, PSG)的特点,以提高对睡眠呻吟症的认识。

1 病例资料

1.1 例 1 男,14 岁。“睡眠呻吟 4 年,加重 1 年”于 2017 年 2 月 5 日就诊。既往健康。4 年前,家长发现其睡眠中经常发出声音,日间无记忆。近 1 年加重,发生次数增多,日间学习、生活正常。查体:身高 178 cm,体重 85 kg,颈围 40 cm, BMI 为 26.8,心、肺、腹无阳性体征。化验血常规、肝肾功能、甲状腺功能、血糖均正常,心电图正常, X 线胸片未见异常,头颅 MRI 正常,电子喉镜检查正常。PSG 如下:睡眠结构尚可,睡眠有效率 94.2%,觉醒 10 次;存在呼吸事

件,呼吸暂停-低通气指数(apnea-hypopnea index, AHI)1.4 次/h。呼吸时呻吟,成串出现,酷似中枢性呼吸暂停,胸腹运动停止,血氧饱和度>90%,不伴有微觉醒,但呼吸节律不稳定,整晚共出现 12 次,其中 REM 期 2 次, NREM 期 10 次,最长持续 5 min 40 s,最短 44 s,呻吟声音 4~18 s,多为 4~7 s。诊断为睡眠呻吟症,拒绝呼吸道持续正压通气(continuous positive airway pressure, CPAP)治疗,1 年时随访患者无变化。

1.2 例 2 男,21 岁。“睡眠呻吟 7 年,加重 2 年”于 2019 年 3 月 27 日就诊。既往健康。7 年前,上中学住宿时同寝室同学发现其睡眠中经常发出声音,以为“说梦话”,未介意。近 2 年学习加重,睡眠呻吟也增多。查体:身高 170 cm,体重 57.5 kg,颈围 38 cm, BMI 为 19.9,心、肺、腹无阳性体征。化验血常规、肝肾功能、甲状腺功能、血糖均正常,心电图正常, X 线胸片未见异常,头颅 MRI 正常,电子喉镜检查未见异常。焦虑自评量表(self-rating anxiety scale, SAS)无焦虑症状,抑郁自评量表(self-rating depression scale, SDS)无抑郁症状。PSG 如下:睡眠结构正常,睡眠有效率 92%,觉醒 6 次;存在呼吸事件, AHI 1.1 次/h。呼吸时呻吟,成串出现,酷似中枢性呼吸暂停,呼吸节律不稳定,胸腹运动停止,血氧饱和度>90%,不伴有微觉醒,整晚共出现 15 次,均在 NREM 期,持续时间分别最长持续时间 32 s,最短 14 s;呻吟时间多在 2~5 s,1 次持续 7 s,1 次持续 18 s。诊断为睡眠呻吟症,

给予佩戴口腔矫治器治疗,整夜无呻吟声音出现。

1.3 例3 男,28岁。“反复睡眠呻吟12年”于2019年12月30日就诊。12年前,车祸左小腿骨折后出现睡眠呻吟,似“老牛叫”的声,一直按“惊吓、邪病”治疗。逐渐长大后,自觉压力减小,睡眠呻吟发生次数减少、时间也短,压力大时,发生次数增多、时间也长。查体:身高177 cm,体重95 kg,颈围42 cm,BMI为28.5,心、肺、腹无阳性体征。化验血常规、肝肾功能、甲状腺功能、血糖均正常,心电图正常,X线胸片未见异常,头颅MRI正常,长程脑电图检查正常,电子喉镜检查正常。PSG如下:睡眠结构正常,睡眠有效率91.6%,觉醒10次;存在呼吸事件,AHI 2.6次/h。呼吸时呻吟,成串出现,酷似中枢性呼吸暂停,胸腹运动停止,血氧饱和度 $>90\%$,不伴有微觉醒,呼吸节律不稳定,整晚共出现3次,均在NREM期,持续时间分别是60 s、70 s、3 min 40 s;前2次呻吟声音持续2~3 s,而在3 min 40 s中连续出现呻吟声音9次,其中,前6次呻吟声音持续2~3 s,后3次分别持续6 s、7 s、10 s。诊断为睡眠呻吟症,拒绝CPAP治疗,1年时随访患者无变化。

2 讨论

2.1 病因、发病机制与呻吟声音的特点 呼吸均匀、安静是健康的睡眠状态。睡眠呻吟症是一种发生在夜间的慢性呼吸障碍性疾病,病因不清。Iriarte等^[4]利用声谱图和波形图分析证实,睡眠呻吟的发生源于声带,而非源于气道;Ott等^[5]认为睡眠呻吟的病因可能与呼气时声门近乎完全闭合有关。发病机制不清楚,可能发病机制有^[2]:(1)REM期患者声带关闭患者呼吸加以克服。(2)REM期呼吸时周围气道反应性变窄。(3)控制气道的神经受损。(4)呻吟可能与微觉醒有关。(5)或与持续存在的不健全的气道通气模式有关。睡眠呻吟声音的特点:(1)呻吟声音间断出现在呼吸的呼气相。(2)是一种单调的呼气呻吟声,通常是一个“a”、“e”、“o”的声音,或在此之间的声音,响度非常大,在40~120 dB之间,有憋气的感觉,或类似开裂的声音,或响亮的嗡嗡声或咆哮声音^[6],不伴有窒息感,也无肢体抽动或刻板的异常活动。(3)呻吟声音持续时间不定,因人而异,ICSD第二版指出为2~49 s^[7]。

2.2 临床表现及PSG特点 (1)睡眠呻吟症发病率为0.3%~0.4%,通常在青春期或成人早期发病,平均年龄19岁,男性多于女性。(2)多无任何诱因素和基础疾病^[2]。Oldani等^[8]观察了21例患者,未发现

相关诱因及基础疾病。(3)无任何日间症状,醒后无记忆。少部分患者存在日间嗜睡、疲劳、睡眠不解乏、失眠等症状^[6]。项泊云等^[9]报道2例患者,1例患者睡眠中憋气伴有高调的类呻吟样发生,醒后无记忆,另1例患者,睡眠呻吟频发觉醒,伴有日间困倦、记忆力减退,反应迟钝、注意力不集中。王富丽等^[10]等报道2例患者:1例患者晨起伴有嗜睡,日间乏力;另1例患者,伴醒后躯体麻痹,自觉被他人掐住脖子,伴有窒息感,意识清楚,不能说话,约10 min缓解,醒后对此无记忆。(4)典型临床表现是深吸气后呼气延长,并伴有呻吟般的单调声音^[6],常成串出现,呻吟持续的时间不确定,可能每晚发作。患者通常意识不到这个问题,多由同寝者或家庭成员的发现而就医。(5)PSG特点:①PSG可见呼吸相徐缓的呼吸模式,成串出现,酷似中枢性呼吸暂停^[6],1次深吸气之后伴随1次长呼气,呼吸相延长,口鼻气流暂停,无胸腹运动,并在呼吸时发出呻吟,成串出现。无呻吟发生时,呼吸气流稳定。②徐缓的呼吸模式发生时,血氧饱和度(SaO_2)可以表现为轻度降低(SaO_2 下降3%以上),但 SaO_2 不低于90%。PSG多不伴有微觉醒,也可在徐缓的呼吸模式之前伴有微觉醒。本组3例患者初次发病年龄较早,均是他人发现其睡眠呻吟,自己不知晓,各项检查提示无基础疾病,均无阳性体征,3例患者PSG特点是出现酷似中枢性呼吸暂停的事件,多出现在NREM期,只有例1患者2次出现在REM期,同时胸腹运动消失,伴有高调的呻吟声音,不伴有低氧血症和微觉醒,符合睡眠呻吟症的临床特点。3例患者徐缓的呼吸模式持续时间与患者呻吟持续不完全相等,而且徐缓的呼吸模式节律不稳定:例1患者前部分徐缓的呼吸模式节律规整,后部分不规整;例2患者每次呻吟声音发生时伴有身体扭动,PSG表现呼吸加快加深之后出现徐缓的呼吸模式;例3患者徐缓的呼吸模式完全节律不规整;无呼吸事件时呼吸平稳, SaO_2 正常,胸腹运动良好。

2.3 治疗方法 睡眠呻吟症患者不伴有夜间动脉 SaO_2 的下降,其对机体的损伤和危害尚无报道,CPAP、手术、药物治疗等治疗效果存在争议。许力月等^[11]认为,如没有严重社交障碍、无白天嗜睡、无合并其他需要治疗的疾病,可以选择不治疗。Dias等^[12]发现应用CPAP治疗后大部分患者的呻吟和白天嗜睡等症状均有改善。王富丽等^[10]报道1例患者采用CPAP治疗睡眠呻吟改善,随访患者无发作,日间嗜睡、疲劳感明显改善,另1例患者给予曲唑酮治

(下转第1403页)

综上所述,CD在临床上罕见,临床表现及实验室、影像学无特异性,当患者出现不明原因发热、消瘦、淋巴结肿大时需注意排除CD,必要时完善淋巴结活检,及早诊断以改善患者预后。

参考文献

- [1] 国家卫生健康委,科技部,工业和信息化部,国家药品监督管理局,国家中医药管理局.关于公布第一批罕见病目录的通知[EB/OL].(2018-06-08).[2021-02-25].http://www.nhc.gov.cn/yzygj/s7659/201806/393a9a37f39c4b458d6e830f40a4bb99.shtml.
- [2] Case records of the Massachusetts General Hospital.Weekly clinicopathological exercises.Case 18-1978[J].N Engl J Med,1978,298(19):1071-1078.
- [3] Rhee FV, Oksenhendler E, Srkalovic G, et al. International evidence-based consensus diagnostic and treatment guidelines for unicentric Castleman disease[J]. Blood Adv, 2020, 4(23):6039-6050.
- [4] Koa B, Borja AJ, Aly M, et al. Emerging role of 18F-FDG PET/CT in Castleman disease: a review [J]. Insights Imaging, 2021, 12(1):1-11.
- [5] Waterston A, Bower M. Fifty years of multicentric Castleman's disease [J]. Acta Oncol, 2004, 43(8):698-704.
- [6] Casper C. The aetiology and management of Castleman disease at 50 years: translating pathophysiology to patient care [J]. Br J Haematol, 2005, 129(1):3-17.
- [7] El-Osta HE, Kurzrock R. Castleman's disease: from basic mechanisms to molecular therapeutics [J]. Oncologist, 2011, 16(4):497-511.
- [8] Suneja S, Chidambaram M, Herzenberg AM, et al. Kidney involvement in multicentric castleman disease [J]. Am J Kidney Dis, 2009, 53(3):550-554.
- [9] Lajoie G, Kumar S, Min KW, et al. Renal thrombotic microangiopathy associated with multicentric Castleman's disease. Report of two cases [J]. Am J Surg Pathol, 1995, 19(9):1021-1028.
- [10] Polizzotto MN, Uldrick TS, Hu D, et al. Clinical manifestations of kaposi sarcoma herpesvirus lytic activation: multicentric castleman disease (KSHV-MCD) and the KSHV inflammatory cytokine syndrome [J]. Front Microbiol, 2012, 3:73.
- [11] Mylona EE, Baraboutis IG, Lekakis LJ, et al. Multicentric Castleman's disease in HIV infection: a systematic review of the literature [J]. AIDS Rev, 2008, 10(1):25-35.
- [12] Casper C, Nichols WG, Huang ML, et al. Remission of HHV-8 and HIV-associated multicentric Castleman disease with ganciclovir treatment [J]. Blood, 2004, 103(5):1632-1634.
- [13] Ferrero S, Ragaini S. Dichotomic response to interleukin-6 blockade in idiopathic multicentric Castleman disease: two case reports [J]. J Med Case Rep, 2021, 15(1):1-4.
- [14] Starkey CR, Joste NE, Lee FC. Near-total resolution of multicentric Castleman disease by prolonged treatment with thalidomide [J]. Am J Hematol, 2006, 81(4):303-304.
- [15] Zhang L, Zhao AL, Duan MH, et al. Phase 2 study using oral thalidomide-cyclophosphamide-prednisone for idiopathic multicentric Castleman disease [J]. Blood, 2019, 133(16):1720-1728.

收稿日期:2021-02-25 修回日期:2021-04-25 编辑:石嘉莹

(上接第1400页)

疗后睡眠瘫痪症消失,睡眠呻吟改善。本组例2采用了佩戴口腔矫正器,夜间呻吟消失,其他2例患者拒绝接受CPAP治疗或佩戴口腔矫正器治疗。随访患者无变化。

总之,患者睡眠中发出呻吟声音,PSG检测结合典型表现是诊断的金标准。应充分评估患者的情况,个体化采取CPAP、口腔矫正器、药物等治疗措施。

参考文献

- [1] DeRoecq J, Hoof EV, Cluydts R. Sleep-related expiratory groaning. A case report [J]. J Sleep Res, 1983, 12:237.
- [2] 范玉兰,王赞,白辉英.睡眠医学工作手册[M].长春:吉林大学出版社,2017.
- [3] 美国睡眠医学会.睡眠障碍国际分类[M].高和,译.3版.北京:人民卫生出版社,2017:90-91.
- [4] Iriarte J, Fernández S, Fernandez-Arrechea N, et al. Sound analysis of catathrenia: a vocal expiratory sound [J]. Sleep Breath, 2011, 15(2):229-235.
- [5] Ott SR, Hamacher J, Seifert E. Bringing light to the sirens of night: laryngoscopy in catathrenia during sleep [J]. Eur Respir J, 2011, 37(5):1288-1289.
- [6] 莫冉冉,李慧婷,李明娟.睡眠呻吟:睡眠呼吸障碍老成员的新认识[J].中华结核和呼吸杂志,2018,41(11):884-886.
- [7] American Academy of Sleep Medicine. International Classification of Sleep Disorders [M]. 2nd ed. Westchester: American Academy of Sleep Medicine, Darien, 2014.
- [8] Oldani A, Manconi M, Zucconi M, et al. 'Nocturnal groaning': just a sound or parasomnia? [J]. J Sleep Res, 2005, 14(3):305-310.
- [9] 项泊云,康增路,张晓雷.睡眠呻吟二例[J].中华内科杂志,2019,58(10):786-787.
- [10] 王富丽,刘松岩,国琦,等.睡眠呻吟症2例临床分析及文献复习[J].中风与神经疾病杂志,2020,37(2):161-162.
- [11] 许力月,张希龙.夜间呻吟:一种新的睡眠呼吸障碍[J].中华结核和呼吸杂志,2015,38(9):656-658.
- [12] Dias C, Sousa L, Batata L, et al. CPAP treatment for catathrenia [J]. Rev Port Pneumol, 2017, 23(2):101.

收稿日期:2021-02-07 修回日期:2021-04-02 编辑:石嘉莹