

REM Uykusuyla İlişkili Uyku Fenomenlerinin Eşlik Ettiği Nokturnal İnleme / Nocturnal Groaning Associated with REM Sleep Phenomenon

Nida Fatma Taşçılar,¹ Derya Kaynak,² Hakan Kaynak²

¹Zonguldak Karaelmas Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroloji Anabilim Dalı, ZONGULDAK

²Istanbul Üniversitesi Cerrahpaşa Tıp Fakültesi Nöroloji Anabilim Dalı, İSTANBUL

ABSTRACT

Nocturnal Groaning Associated with REM Sleep Phenomenon

Scientific background: Nocturnal groaning is described as a syndrome with expiratory monotonous vocalization associated with a respiratory dysrhythmia during sleep. To date, few cases have been reported. Nocturnal groaning is a predominantly REM sleep-related phenomenon, because a great prevalence for REM sleep-related episodes had been observed. Although in some literature it was told that nocturnal groaning was associated with some cases of bruxism and/or sleepwalking, there is no report of nocturnal groaning associated with any other REM related sleep phenomenon.

Objective: To report the association of REM related sleep phenomena, such as sleep paralysis and hypnagogic hallucinations with nocturnal groaning in a twenty-year-old girl with excessive daytime sleepiness and to discuss the causes of this association.

Material and methods: Neurological and ear-nose-throat examinations, Epworth sleepiness scale, full-night polysomnography and multiple latency test were done.

Results: The association of nocturnal groaning with the other REM sleep related phenomemons had to be kept in mind and investigated in

every patient with nocturnal groaning. By this means, whether the occurrence of this association is due to a coincidence or same pathophysiological background could be enlightened.

ÖZET

Bilimsel zemin: Nokturnal inleme, uyku sırasında respiratuvar disritminin eşlik ettiği ekspiryumda monoton ses çıkışının olduğu bir sendromdur. Günümüze kadar çok az nokturnal inlemeli olgu bildirilmiştir. Nokturnal inleme epizodlarının prevalansı özellikle REM uykusunda çok yüksektir. Bu nedenle REM uykusuyla ilişkili bir fenomen olduğu kabul edilmektedir. Bazı çalışmalarda, hastaların birçoğunda bruksizm ve uykuda yürüme de vardır denmesine rağmen, REM uykusuyla ilişkili uyku fenomenleriyle birlikteliği açısından herhangi bir bilgi bulunmamaktadır.

Amaç: 20 yaşında gündüz aşırı uykululuğu olan kadın hastada nokturnal inleme ve REM uyku fenomenlerinden uyku paralizisi ve hipnagojik halüsinasyonların birlikteliğini bildirmek ve bu birlikteliğin nedenlerini tartışmak.

Gereç ve yöntemler: Nörolojik muayenesi ve kulak-burun-boğaz muayenesi, Epworth uykululuk skalası, tüm-gece polisomnografi tetkiki, multipl uyku latansı testi yapıldı.

Sonuçlar: Nokturnal inlemeli olgularda diğer REM uykusuyla ilişkili fenomenlerin birlikte bulunabileceği akla gelmeli ve her nokturnal inlemeli

Keywords: nocturnal groaning, parasomnia, sleep, catathrenia, sleep paralysis, REM sleep

Yazışma Adresi/Address for Correspondence:

Dr. Nida Fatma Taşçılar
Fatih sitesi Hizmet Yapı Koop. C Blok No:9 Kozlu/ZONGULDAK
Tel: 0372 261 01 69-1624 Faks:0372 261 01 55
doga24@yahoo.com

Dergiyeye Ulaşma Tarihi/Received: 26.11.2006

Kesin Kabul Tarihi/Accepted: 28.11.2006

Anahtar kelimeler: nokturnal inleme, parasomni, katatrenia, uyku paralizisi, REM uykusu

7. Ulusal Uyku Bozuklukları Kongre'sinde sözel bildiri olarak sunulmuştur.

olguda sorgulanmalıdır. Ancak bu sayede, bu birlikteliğin rastlantısal mı yoksa benzer patofizyolojiye mi bağlı geliştiği aydınlatılabilecektir.

GİRİŞ

De Roeck ve Van Hoof tarafından 1983'te uykuda respiratuvar disritminin eşlik ettiği ekspiratuvar monoton ses çıkarma olan tanımlanan nokturnal inleme, 2005 Uluslararası Uyku Bozuklukları Sınıflamasında parasomniler içinde yer almıştır.¹⁻³ Literatür taramalarımıza göre, günümüze kadar bildirilen olgu sayısı çok azdır.¹

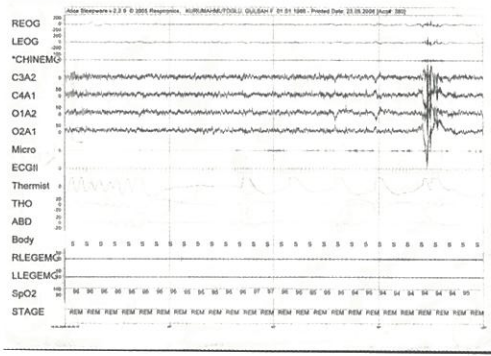
Pevernagie ve arkadaşlarının 2001 yılında 10 nokturnal inlemeli (NI) hastayla yaptıkları bir çalışmada, 2 hastada bruksizm ve 1 hastada ise uykuda konuşma saptanırken, hastaların ailelerinden birinde bruksizm, birinde ise NI bulunmuştur.² Tüm hastalarda özellikle uyku paralizi, hipnagogik halüsinasyon ve katapleksi sorgulanmış ve hepsi, bunların olmadığını belirtmiştir.² Oldani ve arkadaşlarının 2005 yılında anamnezlerinde NI tarifleyen 21 kişiyle yaptıkları bir diğer çalışmada ise, 4 kişide bruksizm saptanmış, ailelerindeyse bruksizm, uykuda konuşma, uykuda yürüme, uyku terörü, NI olduğu gözlenmiştir. 21 kişiden sadece 12'sinde NI tanısı polisomnografiyle desteklenebilmiştir. Bu 12 hastanın ailelerinde ise 3 bruksizm, 4 uykuda konuşma ve 3 NI olgusu saptanmıştır.⁴ Her iki çalışmada da bildirilen bruksizm sıklığı genel popülasyondan farklı bulunmamıştır.⁴

Ayrıca, NI esas olarak REM uykusuyla ilişkili bir fenomendir.⁴ Diğer REM uykusuyla ilişkili fenomenlerse hipnagogik halüsinasyonlar ile uyku paralizi, REM davranış bozukluğu ve kâbusları içine alan genellikle REM uykusuyla ilişkili parasomnileri içermektedir.^{3,5}

Günümüze kadar, NI'nin olduğu hastalarda başka REM uykusuyla ilişkili uyku fenomeni bildirilmemiştir. Burada, nokturnal inlemeye REM uykusuyla ilişkili fenomenlerden uyku paralizi ve hipnagogik halüsinasyonların eşlik ettiği olgu sunularak bu birlikteliğin olası sebepleri literatürler eşliğinde tartışılacaktır.

OLGU

20 yaşında kadın hasta, 5 yıldır devam eden gündüz aşırı uykululuk, horlama ve sabahları ağız kuruluğu şikâyetleri ile Cerrahpaşa Tıp Fakültesi Nöroloji Anabilim Dalı Uyku Ünitesi'ne başvurdu. Hasta, inlemesinin farkında olmamakla birlikte, ailesi hemen hemen her gece, özellikle gecenin ikinci yarısında "monoton inleme sesi" dönemlerinden bahsediyordu. Son bir yıldır pek çok defa uyku paralizi ve hipnagogik halüsinasyon deneyimleri olmuştu. Psikiyatrik bir sorunu olmadığı gibi, göğüs hastalıklarına ait bir belirti de bulunmuyordu. Fizik, nörolojik ve kulak-burun-boğaz muayeneleri normaldi. Epworth uykululuk skalasında 9 puan aldı. (Normal: <8) Polisomnografi bulguları: Tüm gece video-senkronize polisomnografi (Alice Sleepware v2.2.9 2005 Respirationics) tetkiki yapıldı. Kayıtlanan parametreler: EEG (C3-A2, C4-A1), elektrookulografi (sol ve sağ dış kantus), submental ve bilateral tibialis anterior kaslarının yüzeysel EMG'si, elektrokardiyografi, puls oksimetre ile arteriyel oksijen satürasyonu, horlama sensörü ile solunum sesleri, termistörlerle oronazal hava akımı monitörize edildi. Torasik ve abdominal solunum hareketleri piezosensörlerle kayıtlandı. Uyku ve solunumsal olaylar 30 saniye epoklar şeklinde elle skorlandı. İnleme uykuya daldıktan 2 saat sonra başladı ve REM uykusunda özellikle kümeler şeklinde oluştu. Polisomnografinin çekildiği gece 7 kere nokturnal inleme dönemleri gözlemlendi. Bunların sadece 2'si NREM Evre 2'de oldu. İnleme sırasında anormal hareketler veya solunum sıkıntısı olmuyordu. İnleme, vücut pozisyonundan bağımsızdı ve sadece ekspirasyon sırasında meydana geliyordu. İnlemeye kalp hızında hafif azalma (bradikardi) eşlik ediyordu. Her inleme atağını bir horultu ve kalp hızında tepkisel artış (taşikardi) izliyordu (Şekil 1). Oksijen satürasyonu %94'le %98 arasındaydı. Sırtüstü yatarken çok hafif bir horlaması vardı. Nadir solunum eforları gözlemlendi. Uykunun makroorganizasyonu normal, uyku etkinliği %97 olarak saptandı. Multipl uyku latansı testinde (MULT) ortalama latans 12,3 sn ve 1 tane uyku başlangıcında hızlı göz hareketleri periyodu (SOREMP) gözlemlendi.



Şekil 1. REM uykusu sırasında sadece ekspiryumda gelişen nocturnal inleme. Bradikardiyle birlikte ve inlemenin sonlanmasıyla taşikardi ve EEG'de arosal reaksiyonu gelişiyor. REOG: Sağ elektrookulografi; LEOG: Sol elektrookulografi; CHINEMG: Mental kas elektromyografisi; Micro: Mikrofon; ECGII: Elektrokardiyografi Thermist: Termistörlerle saptanan Oronasal hava akımı; THO: Göğüs hareketleri; ABD: Karın hareketleri; Body: Vücut pozisyonu; RLEGEMG: Sağ tibialis anterior kasının elektromyografisi; LLEGEMG: Sol tibialis anterior kasının elektromyografisi; SpO2: Puls-oksimetreyle oksihemoglobin saturasyon yüzdesinin tayini; STAGE: Uyku dönemleri; S: Sirtüstü; REM: Hızlı göz hareketleri dönemi

TARTIŞMA

Hastamız noktural inleme tanı kriterlerini, sadece hikayesinde uykuda düzenli gelişen inleme dönemlerinin olmasıyla değil polisomnografi bulgularıyla da karşılıyordu.^{3,4} Noktural inleme çok nadir bir parasomnidir (<%1).⁴ Bu bozukluğun klinik altın kuralı bizim de hastamızda gözlediğimiz sıklıkla REM uykusunda nadiren NREM Evre 2 uykusunda ses oluşumuyla giden solunum değişikliğidir.^{1,4} REM uykusuyla ilişkili epizodların prevalansının fazla olmasından dolayı REM uykusuyla ilişkili bir fenomen olarak kabul edilmektedir.⁵

Inlemenin kökeni tam olarak saptanmamıştır. 1983'te De Roeck ve Van Hoof, 3 olası patojenetik mekanizma önermişlerdir:⁴ 1. REM uykusunda kord vokallerde fonksiyonel oklüzyon olması ve bu direnci yenmek için zorlu ekspirasyon gelişmesi; 2. REM uykusunda ekspirasyon sırasında periferik hava yollarında kritik daralma olması; 3. Solunumu kontrol eden nörolojik yapıları içeren fonksiyonel ve/veya anatomik lezyonların gelişmesi. Vetrugno ve arkadaşları ise 2001 yılında bu önerilenlere "Uyanırken yapılan laringoskopik incelemenin normal olması, uykuyla ilişkili olarak ekspirasyon

sırasında üst solunum yollarında fonksiyonel obstrüksiyonun olmadığını göstermez" diyerek katılmışlardır.⁶ 2006 yılında ise sıklıkla REM uykusunda gözlenmesini uykunun bu evresinde diyafram ve orofaringeal kasların anormal asenkron aktivasyonu ile ilişkilendirmeye çalışmışlardır.¹ Bizim hastamızda da Nİ çoğunlukla REM uykusunda gözlendiğinden, yukarıda bahsi geçen patojenetik mekanizmalar bizim hastamız için de geçerli olabilir.

Ancak, hastamızda sadece noktural inleme değil uyku paralizisi, hipnagogik hallüsinasyonlar ve MULT'de 1 kere SOREMP'da bulunmaktadır. Bunların tümü anormal REM uykusuyla ilişkili fenomenlerdir.⁵ Narkolepsinin ana semptomlarından olan uyku paralizisi tüm narkoleptik hastaların %20-50'sinde, genel toplumun da %5-40'ında gözlenmektedir.⁵ Bunun yanı sıra, çoğunlukla REM uykusunda gözlenen hipnagogik halüsinasyonların da sıklıkla narkoleptik hastalarda olduğu belirtilmektedir.⁵ Gündüz artmış uykululuk, katapleksi ve anormal REM uykusu fenomenleri kliniği ile tanımlanan narkolepsinin tanısında noktural polisomnografinin ardından yapılan MULT'ne ve BOS hipokretin düzeylerine başvurulur.³ Narklepside MULT'inde ortalama latans 8 dk. eşit veya altında ve 2 veya daha fazla SOREMP'ları bulunur.³ Ancak, MULT'nin narklepside tanı değeri son zamanlarda Lammers ve Van Dijk, Moscovitch gibi bazı yazarlar tarafından sorgulanmaktadır.⁵ Çünkü, narkolepsi katapleksi hastalarının %15'inde MULT sonuçları normal veya sıklıkla sınırdadır; şöyle ki: uyku latansı 8 dk. veya daha uzun veya sadece 1 SOREMP saptanmaktadır.^{3,5} Hastamızda, katapleksili narkolepsi veya katapleksisiz narkolepsi tanılarını destekleyecek yeterli kanıtımız olmamakla birlikte, şu andaki haliyle MULT sonucu desteklemese de, takiplerinde katapleksi geliştirdiği takdirde narkolepsi olabileceği ihtimali göz ardı edilmemelidir.

Uyku paralizisi ise, narkolepsi tanısı olmadığında tanısı konulan genellikle REM uykusu ile ilişkili bir parasomnidir. Uyku başlangıcında veya uykudan uyanırken istemli hareketleri yapamama ile

tanımlanmaktadır. REM uykusu elemanlarının uyanıklıkta devam ettiği durum ayrışmasına bir örnektir.³ Uyku apnesi gibi diğer uyku bozukluğu olan hastalarda, hatta sağlıklı kontrollerde bile uyku/uyanıklık düzeni bozulunca sıklıkla SO-REMP'ları, hipnagojik halüsinasyonlar, uyku paralizi gözlenebilir.⁵

Bu bulgudan yola çıkılarak, bizim hastamızda gözlenen uyku paralizi ve hipnagojik halüsinasyonların birlikteliği şöyle yorumlanabilir: 1. Sıklıkla REM uykusuyla ilişkili olan Nİ, REM uykusu sırasında uykuyu bozarak uyku paralizi, hipnagojik halüsinasyonlar gibi REM uykusuyla ilişkili uyku bozukluklarına yol açabilir; 2. Bu üç REM uykusuyla ilişkili uyku fenomeninin tek bir hastada gözlenmesi tamamıyla tesadüfi bir bulgu olabilir; 3. Bu üç REM uykusuyla ilişkili fenomen benzer patofizyolojiye bağlı gelişmektedir, denebilir.

Nokturnal inlemeli olgularda, diğer REM uykusuyla ilişkili fenomenlerin birlikte bulunabileceği akla gelmeli ve her nokturnal inlemeli olguda sorgulanmalıdır. Ancak bu sayede bu birlikteliğin rastlantısal mı, yoksa benzer patofizyolojiye mi bağlı geliştiği aydınlatılabilecektir.

KAYNAKLAR

1. Iriarte J, Alegre M, Urrestarazu E, Viteri C, Arcocha J, Artieda J. Continuous positive airway pressure as treatment for catathrenia (nocturnal groaning). *Neurology* 2006;66:609-10.
2. Pevernagie DA, Boon PA, Mariman AN, Verhaeghen DB, Pauwels RA. Vocalization during episodes of prolonged expiration: a parasomnia related to REM sleep. *Sleep Med* 2001;2:19-30.
3. American Academy of Sleep Medicine; ICSD, International Classification of Sleep Disorders 2; Diagnostic and Coding Manual: American Academy of Sleep Medicine; 2005.
4. Oldani A, Manconi M, Zucconi M, Castronovo V, Ferini-Strambi L. 'Nocturnal groaning': Just a sound or parasomnia? *J Sleep Res* 2005;14:305-10.
5. Nishino S, Mignot E. Narcolepsy. In: Guilleminault C, ed. *Clinical Neurophysiology of Sleep Disorders Handbook of Clinical Neurophysiology Vol 6*. Amsterdam: Elsevier B.V., 2005:155-77.
6. Vetruogno R, Provini F, Plazzi G, Vignatelli L, Lugaresi E, Montagna P. Catathrenia (nocturnal groaning): A new type of parasomnia. *Neurology* 2001;56:681-83.