



# Katatreni; Polisomnografide Santral Uyku Apnesini Taklit Edebilen Uyku ile İlişkili Solunum Bozukluğu: Bir Olgu Sunumu

## Catathrenia; Sleep-related Respiratory Disorder Which May Mimic Central Sleep Apnea in Polysomnography: A Case Report

Sevgi Ferik, İbrahim Öztura, Barış Baklan

Dokuz Eylül Üniversitesi Tıp Fakültesi, Nöroloji Anabilim Dalı, İzmir, Türkiye

### Öz

Katatreni, uykuda inleme ile karakterize bir uyku ile ilişkili solunum bozukluğudur. Etkilenen bireylerin kendileri tarafından genellikle farkedilmeyen bu durum sıklıkla aile bireyleri veya yatak partnerleri tarafından belirtilmektedir. Nedeni tam olarak bilinmeyen bu bozukluk oldukça nadir görülmektedir. Bu olgu sunumunda inleme yakınması ile başvuran, polisomnografi ile katatreni tanısı konulan bir olgu, klinik ve elektrofizyolojik özellikleri ile sunulmuştur. Katatreninin, polisomnografide santral uyku apne paterni ile karıştırılabileceğine dikkat çekmenin yanı sıra literatürde olgularının sınırlı sayıda bildirilmiş olması nedeniyle ayırıcı tanıda akla gelmesi gerektiği vurgulanmak istenmiştir.

**Anahtar Kelimeler:** Uyku bozukluğu, katatreni, santral uyku apne, polisomnografi

### Abstract

Catathrenia is a sleep-related respiratory disorder characterized by groaning during sleep. This situation is usually not noticed by the affected individuals themselves but is often indicated by family members or bed partners. This disorder, the cause of which is not completely known, is extremely rare. In this case report, a patient who admitted with a complaint of groaning and diagnosed with catahtronia by polysomnography was presented with its clinical and electrophysiological features. In addition to drawing attention to the fact that catathrenia may be confused with the central sleep apnea pattern in polysomnography, it was emphasized that it should be considered in the differential diagnosis because of a limited number of cases reported in the literature.

**Keywords:** Sleep disorder, catathrenia, central sleep apnea, polysomnography

### Giriş

Katatreni, uyku sırasında solunum paternindeki değişikliklerle birlikte ekspiryum sırasında ortaya çıkan inleme benzeri anormal ses çıkışı ile karakterize bir antitedir (1). Oldukça nadir görülmektedir ve patofizyoloji net bilinmemektedir (2,3). Tanıda polisomnografi önemlidir. Ancak dikkatli değerlendirilmezse polisomnografide santral uyku apnesi ile karışabilmektedir (4-6). Tedavi ve uzun dönem prognoz ile ilgili yeterince veri yoktur. Burada uykuda inleme yakınması ile başvuran bir olgu sunulmuştur.

### Olgu Sunumu

Yirmi yedi yaşında kadın hasta, 12 yıldır devam eden, hemen hemen her gece olan, uykuda inleme tarzı ses çıkarma yakınması ile hastanemize başvurdu. Hasta bu seslerden dolayı yatak partnerinin rahatsız olduğunu ve sosyal olarak sorun yaşadığını ifade etti. Yakınları tarafından farkedilen bu inleme tarzı ses dışında kendisinin uyku ile ilişkili bir yakınması yoktu. Uyku günlüğü düzenli idi ve gündüz aşırı uykululuk yakınması yoktu. Özgeçmişinde serebral palsy ve majör depresyon tanılarını vardı. Ek olarak çocukluk döneminde uykusunda konuştuğu, ergenlik döneminde ise bunun azalarak kaybolduğu öğrenildi. Yapılan

**Yazışma Adresi/Address for Correspondence:** Dr. Sevgi Ferik, Dokuz Eylül Üniversitesi Tıp Fakültesi, Nöroloji Anabilim Dalı, İzmir, Türkiye

Tel.: +90 232 412 22 22 E-posta: s.ferik@hotmail.com ORCID-ID: orcid.org/0000-0001-9385-6040

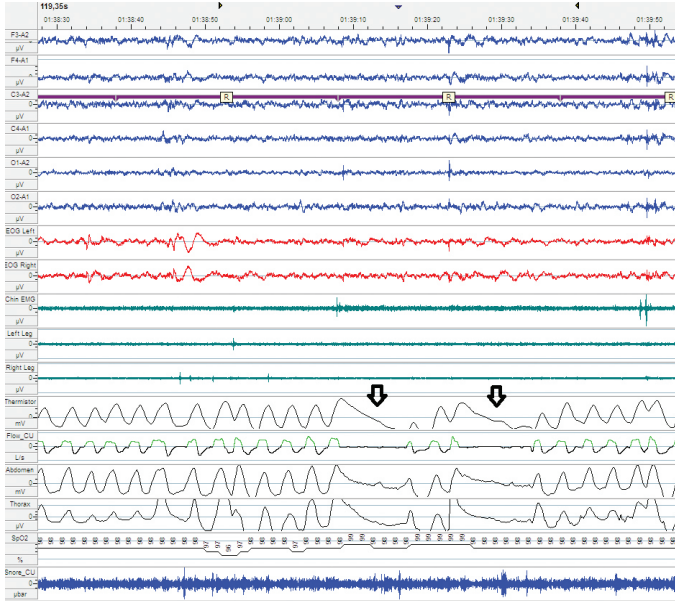
Geliş Tarihi/Received: 22.10.2019 Kabul Tarihi/Accepted: 06.01.2020

©Telif Hakkı 2020 Türk Uyku Tıbbi Derneği / Türk Uyku Tıbbi Dergisi, Galenos Yayınevi tarafından basılmıştır.

fizik muayenesinde sağ üst ve alt ekstremitesinde ılımlı atrofi saptandı. Uykuda inleme yakınmasının ilk başladığı yıllarda parasomni olarak kabul edilen hasta imipramin, melatonin, klonazepam, mirtazapin, sertralin, melatonin agonisti tedavilerini etkin doz ve sürelerde kullanmış olmasına rağmen uykuda inleme yakınması devam etmekteydi. Hastanın tüm gece polisomnografi incelemesi yapıldı. Polisomnografide uyku yapısı normal olarak değerlendirildi. Ancak uyku pozisyonundan bağımsız olarak, sıklıkla hızlı göz hareketi (REM) uyku evresi sırasında, nadiren de non-REM uykusu sırasında derin inspiryumdan sonra uzamış bir ekspiryum periyodunun kümeler halinde olduğu saptandı (Figür 1). Bu görüntünün santral uyku apnesi paterni ile karışabileceği düşünüldü. Ancak hastanın eş zamanlı video ve ses kayıtlarında ekspiryum sırasında inleme tarzı ses çıkışı olduğu ve bu epizodlara solunum sıkıntısı veya oksijen desatürasyonunun eşlik etmediği dikkati çekti. Hastanın kaydedilen bu bradipne periyotları dışında tipik hipopne/apne paternleri izlenmedi. Hastaya bu bulgular ile katatreni tanısı konuldu. Sunulan olgudan detaylı bilgilendirilmiş olur formu alınmıştır.

## Tartışma

Katatreni, ilk kez 1983'te De Roeck (7) tarafından tanımlanmıştır. Temel özelliği uyku sırasında solunum paternindeki değişikliklerle birlikte nefes verme sırasında ortaya çıkan anormal sestir (8). Patofizyolojisi net olmayan bu bozukluğun parasomni olarak kabul edilmesi önerilmiş ve 2005 yılında Amerikan Uyku Tıbbı Akademisi tarafından Uluslararası Uyku Bozuklukları Sınıflaması'nda diğer parasomniler başlığı altında kabul



**Figür 1.** Polisomnografik bir epok. Uzamış ekspiryum periyodu (siyah ok). Yukarıdan aşağıya doğru kanallar: Elektroensefalografi (6 kanal), elektrookülografi (2 kanal), çene elektromiyografi (EMG), ekstremiteler EMG (2 kanal), termistör, nazal hava akımı, abdominal solunum hareketleri, torasik solunum hareketleri, oksijen saturasyonu, trakeal sesler

edilmiştir (9). Ancak uykuda konuşma, motor aktivite veya anormal davranış ile ilişkili olmaması ve solunum ile ilişkisi nedeniyle parasomni olduğu görüşünden uzaklaştırılmıştır. 2014 yılında uyku ile ilişkili solunum bozukluklarından izole semptom ve varyantlar başlığı altında sınıflandırılmıştır (1). Hala parasomni mi yoksa solunum ile ilişkili bir bozukluk mu olduğu tartışmalıdır. Hatta bazı yazarlar tarafından katatreninin iki tipi olduğu düşünülmektedir (10).

Solunum ritmi, inspiratuvar ve ekspiratuvar deşarj aktivitelerinden oluşur. Katatrenide temel olarak derin inspiryum ile uzamış ekspiryumdan oluşan bradipne şeklindeki solunumsal bir ritim değişikliği ve ekspiryuma eşlik eden vokalizasyon söz konusudur (8). Tüm yazarlar tarafından kabul edilen ortak görüş, katatrenide sesin kesinlikle ekspiratuvar olmasıdır (1). Yani sadece ekspiryum sırasında görünür ve inspiryum sırasında tamamen durur.

Katatreni nadir görülen bir durumdur. Bir uyku bozuklukları kliniğinde prevalansının %0,5'ten bile düşük olduğu ancak son yıllarda artan olgu bildirimleri nedeniyle gerçek prevalansın daha yüksek olabileceği düşünülmektedir (8). Sıklıkla adolesan dönemde başlamaktadır (11).

Bizim hastamızda da olduğu gibi etkilenen bireylerin sıklıkla uyku ile ilgili bir yakınması yoktur ve bu durumun farkında değildirler. Genellikle bu durum aile üyeleri veya yatak partnerleri tarafından farkedilmektedir (1,12). İnleme benzeri olan bu ses hastalar için sosyal olarak problem oluşturabilmektedir (10). Çünkü sesin şiddeti 40 ve 120 desibel arasında büyük bir değişkenliğe sahip olabilmektedir (8).

Şimdiye kadar, katatreni ile ilgili herhangi bir predispozan faktör veya net etioloji gösterilmemiştir. Katatreni ile bruksizm, yüzme aktivitesi ve sodyum oksibat kullanımı arasında ilişki olduğu bildirilmiştir (4,8,13). Olgumuzda bu faktörlerden hiçbirisi yoktur. Zaten bu ilişkiler ile ilgili yeterli kanıt da yoktur (3). Bizim olgumuzun majör depresyon öyküsü mevcuttur. Katatreni ve psikiyatrik bozukluklar arasında da net bir ilişki bilinmemesine rağmen, literatürde iki ayrı olgu serisine bakıldığında 8 hastanın 4'ünde ve 47 hastanın 21'inde depresyon veya anksiyete tanılarının eşlik ettiği dikkatimizi çekmiştir (4,11).

Hastaların genellikle gündüz yapılan laringoskopik muayenesi normaldir. Ses telleri hem statik hem de dinamik değerlendirmelerde normaldir. Ancak literatürde bir olguda uyku laringoskopisi ile uykuda inspiryum sırasında glottisin açık olduğu ancak ekspiryum sırasında glottisin tam kapanmadığı bildirilmiş ve inleme sesinin buna bağlı olabileceği düşünülmüştür (14). Yine de inlemenin doğası, kökeni ve anlamı hakkında tam bir fikir birliği yoktur ve altta yatan patofizyoloji net bilinmemektedir (8).

Polisomnografi, tanıyı doğrulamak ve parasomni gibi komorbid uyku bozukluklarını değerlendirmek için uygun şekilde yapıldığında yararlıdır (4). Ancak katatrenide görülen solunum paterni kolayca santral uyku apnesi paterni ile karıştırılabilir (5,6). Polisomnografinin ses ve video kaydı eşliğinde yapılması önemlidir (5). Katatrenin klasik elektrofizyolojik tanımı; derin inspiryumunu takiben inleme veya inleme benzeri seslerin üretildiği, genellikle 2-49 saniye arasında süren uzun süreli bir ekspiryumdur. Bu epizotlara solunum sıkıntısı veya arteriyel oksijen saturasyonu düşüklüğü eşlik etmez (4). REM uyku

evresinde dominant olmakla birlikte uykunun herhangi bir evresinde meydana gelebilir (4,8).

Katatreni tanısının konulabilmesi için, ayırıcı tanıda santral uyku apnesi dışında epileptik nöbetlere eşlik eden vokalizasyon, uykuda konuşma gibi parasomniler, horlama ve stridor da dışlanmalıdır (5,8). Bizim hastamızın çocukluk döneminde uykusunda konuştuğu öğrenilmiştir. Ancak bu durumun ergenlik döneminde düzeldiği ve şu anki yakınmasının sadece inleme şeklinde monoton bir ses çıkışı şeklinde olduğu, kelime veya kelime öbeklerini içermediği dikkatle sorgulanmıştır. Stridor, larinksin kapanmasıyla oluşan inspiratuvar bir sestir. Horlamada ortaya çıkan ses ise hem inspiryumda hem ekspiryumda oluşabilir (8). Yapılan ses analiz çalışmaları da horlama ve katatrenide meydana gelen seslerin net olarak farklı olduğunu ortaya koymuştur; katatrenideki ses laringeal, horlamadaki ses ise faringeal kaynaklıdır (4). Olgumuzda polisomnografide sesin ekspriuma sınırlı olması nedeniyle bu iki durum da düşünülmemiştir. Yine epileptik nöbet de anamnez ve elektroensefalografi kayıtları ile dışlanmıştır.

Günümüzde spesifik bir tedavisi yoktur (8). Bugüne kadar uygulanan tedaviler büyük ölçüde deneysel olmuştur, hiçbir randomize kontrollü çalışma yapılmamıştır. Farmakolojik (anti-depresan, anti-epileptik) ve cerrahi (adenotonsilektomi, faringoplasti, septoplasti) tedavilerin etkisi şimdiye kadar tatmin edici olmamıştır (4). Bazı yayınlarda sürekli pozitif hava yolu basıncı (CPAP) tedavisi ile belirgin fayda alındığı, bazı yayınlarda ise yanıt alınmadığı bildirilmiştir (3,4,8,10,11). Tedaviden fayda gören hastalarda CPAP tedavi mekanizması anlaşılammıştır (4,15). Bu hastalarda derin solunum egzersizleri, yoga ve meditasyonun durumu iyileştirebileceği düşünülmektedir (4).

Şimdiye kadar kötü bir progresyon ya da ciddi bir komplikasyon bildirilmemiştir ancak bu anlamda veriler sınırlıdır (8).

Sonuç olarak; katatreni nadir görülen bir durumdur ancak prevelansının bildirilenden fazla olduğuna inanılmaktadır. Ayırıcı tanıda akla gelmesi gerekmektedir. Tanıda polisomnografi önemlidir; ancak video ve ses kayıtlarıyla birlikte dikkatli değerlendirilmelidir. Hastalığın patofizyolojisi, tedavisi ve prognozu ile ilgili sınırlı veriler mevcuttur, hastalığın daha iyi anlaşılabilmesi için daha fazla olgu ve daha uzun süreli takibin gerekli olduğu düşünülmektedir.

#### Etik

**Hasta onayı:** Sunulan olgudan detaylı bilgilendirilmiş olur formu alınmıştır.

**Hakem Değerlendirmesi:** Editörler kurulu tarafından değerlendirilmiştir.

#### Yazarlık Katkıları

Cerrahi ve Medikal Uygulama: S.F., İ.Ö., B.B., Konsept: S.F., İ.Ö., B.B., Dizayn: S.F., İ.Ö., B.B., Veri Toplama veya İşleme: S.F.,

İ.Ö., B.B., Analiz veya Yorumlama: S.F., B.B., Literatür Arama: S.F., Yazan: S.F.

**Çıkar Çatışması:** Yazarlar bu makale ile ilgili olarak herhangi bir çıkar çatışması bildirmemiştir.

**Finansal Destek:** Çalışmamız için hiçbir kurum ya da kişiden finansal destek alınmamıştır.

#### Kaynaklar

1. American Academy of Sleep Medicine. International Classification of Sleep Disorders. 3rd ed. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine, 2014.
2. Abbasi AA, Morgenthaler TI, Slocumb NL, Tippmann-Peikert M, Olson EJ, Ramar K. Nocturnal moaning and groaning-catathrenia or nocturnal vocalizations. *Sleep Breath* 2012;16:367-73.
3. Ott SR, Hamacher J, Seifert E. Bringing light to the sirens of night: laryngoscopy in catathrenia during sleep. *Eur Respir J* 2011;37:1288-9.
4. Alonso J, Camacho M, Chhetri DK, Guilleminault C, Zaghi S. Catathrenia (Nocturnal Groaning): A Social Media Survey and State-of-the-Art Review. *J Clin Sleep Med* 2017;13:613-22.
5. Siddiqui F, Walters AS, Chokroverty S. Catathrenia: a rare parasomnia which may mimic central sleep apnea on polysomnogram. *Sleep Med* 2008;9:460-1.
6. Okura M, Muraki H. WS1-3. Attended video-audio polysomnographic study about patients with catathrenia (sleep related groaning). *Clin Neurophysiol* 2013;124:29.
7. De Roek J, Van Hoof E, Cluydts R. Sleep-related expiratory groaning. A case report. *J Sleep Res* 1983;12:237.
8. Iriarte J, Campo A, Alegre M, Fernandez S, Urrestarazu E. Catathrenia: respiratory disorder or parasomnia? *Sleep Med* 2015;16:827-30.
9. American Academy of Sleep Medicine. The international classification of sleep disorders: diagnostic and coding manual. 2nd ed. Westchester, IL: American Academy of Sleep Medicine, 2005.
10. Guilleminault C, Hagen CC, Khaja AM. Catathrenia: parasomnia or uncommon feature of sleep disordered breathing? *Sleep* 2008;31:132-9.
11. Dias C, Sousa L, Batata L, Teixeira F, Moita J, Moutinho Dos Santos J. CPAP treatment for catathrenia. *Rev Port Pneumol* (2006). 2017;23:101-4.
12. Vetrugno R, Lugaresi E, Plazzi G, Provini F, D'Angelo R, Montagna P. Catathrenia (nocturnal groaning): an abnormal respiratory pattern during sleep. *Eur J Neurol* 2007;14:1236-43.
13. Poli F, Ricotta L, Vandi S, Franceschini C, Pizza F, Palaia V, Moghadam KK, Banal D, Vetrugno R, Thorpy MJ, Plazzi G. Catathrenia under sodium oxybate in narcolepsy with cataplexy. *Sleep Breath* 2012;16:427-34.
14. Bar C, Pedespan JM, Ghorayeb I. Catathrenia in a four-year-old boy: a first case report. *Sleep Med* 2016;20:131-3.
15. Pevernagie DA. Why catathrenia is a parasomnia. *Sleep Med* 2017;32:227-8.