

야간 신음소리를 주소로 내원한 19세 남자 환자 1례

Case of a 19-Year-Old Male with Nocturnal Groaning (Catathrenia)

강현택 · 이윤지 · 김효준 · 최지호

Hyun Tag Kang, Yun Ji Lee, Hyo Jun Kim, Ji Ho Choi

■ ABSTRACT

Catathrenia is a rare sleep disease characterized by monotonous groaning sounds that appear to be related with prolonged expiration, commonly experienced during rapid eye movement (REM) sleep. Catathrenia is also known as nocturnal groaning or sleep-related groaning and is currently categorized as a sleep-related breathing disorder. We present a rare case of a 19-year-old male with nocturnal groaning during non-REM sleep. We suggest that if catathrenia is suspected, polysomnography should be utilized to differentiate it from various sleep disorders such as snoring, central sleep apnea, sleep talking, parasomnia, and sleep-related movement disorders. **Sleep Medicine and Psychophysiology 2018 ; 25(2) : 92-95**

Key words: Catathrenia · Nocturnal groaning · Sleep-related breathing disorders.

서 론

92

Catathrenia는 수면 동안에 지속되는 호기와 관련되어 나타나는 단조로운 신음 소리를 특징으로 하는 매우 드문 수면 질환으로 정의할 수 있다(De Roeck 등 1983 ; American Academy of Sleep Medicine 2014). 주로 렘수면 중에 나타나지만 비렘수면 중에서도 관찰될 수 있으며, 전형적으로 깊은 흡기에 이어 지속되는 호기와 함께 신음 소리와 유사한 단조로운 발성(vocalization)이 관찰된다(De Roeck 등 1983 ; American Academy of Sleep Medicine 2014 ; Pevernagie 등 2001). 따라서, catathrenia는 야간 신음(nocturnal groaning) 또는 수면관련 신음(sleep related groaning)으로도 알려져 있고, 수면질환의 국제분류 3판[International Classification of Sleep Disorders, 3rd edition (ICSD-3)]에서는 catathrenia가 수면관련 호흡장애(sleep related breathing

disorder)의 범주로 분류되어 있다(American Academy of Sleep Medicine 2014 ; Guilleminault 등 2008).

Catathrenia가 있는 환자 본인은 질환이 있다는 사실을 인지하지 못하는 경우가 대부분이다. 하지만, 같은 공간에서 잠을 자는 배우자나 가족, 친구, 동료 등은 환자의 수면 중 신음 소리에 매우 놀라거나 불편해하거나 불만을 가질 수도 있다(American Academy of Sleep Medicine 2014 ; Vetrugno 등 2008).

Catathrenia가 왜 발생하는지, 신체적으로 또는 신경학적으로 어떠한 영향을 미치는지, 사회적으로는 어떠한 영향을 미치는지, 지속되는 경우 어떠한 후유증을 유발하는지, 치료는 어떻게 하는지, 자연경과는 어떻게 되는지 등 많은 의학적 궁금증들에 대해 현재까지 알려진 정보는 거의 없는 것이 사실이다. 또한, 앞서 언급한 대로, 현재 catathrenia가 수면관련 호흡장애의 범주로 분류되어 있긴 하지만 사건수면(parasomnia) 범주에 속한다는 주장도 있어 이에 대해서는 아직 논란이 있는 상태이다(Guilleminault 등 2008 ; Iriarte 등 2015 ; Pevernagie 등 2017). 따라서, 저자들은 catathrenia 의심 증상인 야간 신음 소리를 주소로 내원한 19세 남자 환자를 대상으로 수면다원검사(레벨1)를 통해 catathrenia로 진단한 증례를 경험하였기에 임상 양상 및 검사 결과들을 중심으로 보고하고자 한다.

Received: November 29, 2018 / **Revised:** December 20, 2018

Accepted: December 21, 2018

순천향대학교 의과대학 부천병원 이비인후-두경부외과

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Soonchunhyang University College of Medicine, Bucheon Hospital, Bucheon, Korea

Corresponding author: Ji Ho Choi, Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Soonchunhyang University College of Medicine, Bucheon Hospital, 170 Jomaru-ro, Bucheon 14584, Korea

Tel: 032) 621-5015, Fax: 032) 621-5016

E-mail: handsomemd@naver.com

증례

군복무 중인 19세 남자 환자가 자면서 앓는 소리를 내거나 신음 소리를 내며, 수면 중 무호흡이 있다는 얘기를 듣고 내원하였다. 보호자 의견에 따르면 중학교 때부터 자면서 신음소리를 내고, 수면무호흡이 있었으나 심하진 않았다고 하였다. 고혈압, 당뇨, 폐질환 등 특별한 과거 병력은 없는 상태였고, Epworth Sleepiness Scale가 6점으로 과도한 주간 졸음은 호소하지 않았다. 키 173 cm, 체중 70 kg로 체질량지수(body mass index, BMI)는 23.4이었으며, 비강 내시경 검사 결과 특별한 이상 소견은 관찰되지 않았고, 구강 검사 결과 편도크기 2단계(tonsil size : grade 2), 구개-혀 위치 2단계(palate-tongue position : grade 2)로 평가되어 프리드만 병기(Friedman stage)는 stage II에 해당되었다.

야간 수면다원검사(레벨1)에서 총 기록시간(Total recording time, TRT)은 442.5분, 총 수면시간(Total sleep time, TST)은 429.5분으로 수면 효율(Sleep efficiency)은 97.1%였으며, 1단계 비렘수면(Stage N1)은 6.8%, 2단계 비렘수면(Stage N2)은 67.3%, 3단계 비렘수면(Stage N3)은 13.4%, 렘수면(Stage R)은 12.6%로 나타났고, 무호흡-저호흡 지수(apnea-hypopnea index, AHI)는 5.3 (central sleep apnea [CSA] index = 4.6 and obstructive hypopnea index = 0.7), 최저 산소포화도(minimum SaO₂)는 91%, 코골이(snoring)는 0%로 조사되었다.

수면다원검사 중 catathrenia는 총 5회 관찰되었는데, 1단계 비렘수면(Stage N1)에서 3회, 2단계 비렘수면(Stage N2)

2회 관찰되었다(Figure 1). 그러나 렘수면(Stage R)에서는 관찰되지 않았다. 환자 및 보호자와 향후 치료 방향에 대한 한 후 catathrenia로 인한 환자의 특이 증상이 없고 간헐적인 야간 신음 소리 외에 중추성 무호흡을 비롯한 수면호흡장애는 비교적 심하지 않아 현재 경과 관찰 중이다. 본 연구는 순천향대학교 부천 병원 임상연구심의위원회의 승인을 받았다(2018-11-017).

고찰

Catathrenia는 특징적으로 수면 중 신음 소리를 내는 매우 드문 수면 질환으로 발생 원인 및 기전에 대해서는 명확하게 밝혀져 있지 않다(De Roeck 등 1983 ; American Academy of Sleep Medicine 2014 ; Iriarte 등 2017). 또한, 유병률조차 현재 정확하게 조사되어 있지 않은 상태이나 수면다원검사를 받는 사람들 중 대략 0.3~0.5%에서 catathrenia가 있는 것으로 알려져 있다(American Academy of Sleep Medicine 2014 ; Overland 등 2012). 수면질환의 국제분류 2판 [International Classification of Sleep Disorders, 2nd edition (ICSD-2)]의 내용에 따르면 여성보다는 남성에서 더 많으며 평균 발병 나이는 19 ± 10세(5~36세)로 조사된 바 있다(American Academy of Sleep Medicine 2005). 하지만 catathrenia 관련 최근 문헌들을 살펴보면 환자들의 평균 연령이 훨씬 더 높은 보고도 있는데 이와 관련된 상세한 내용을 알기 위해서는 좀 더 많은 증례들이 필요한 실정이다 (Abbasi 등 2012).

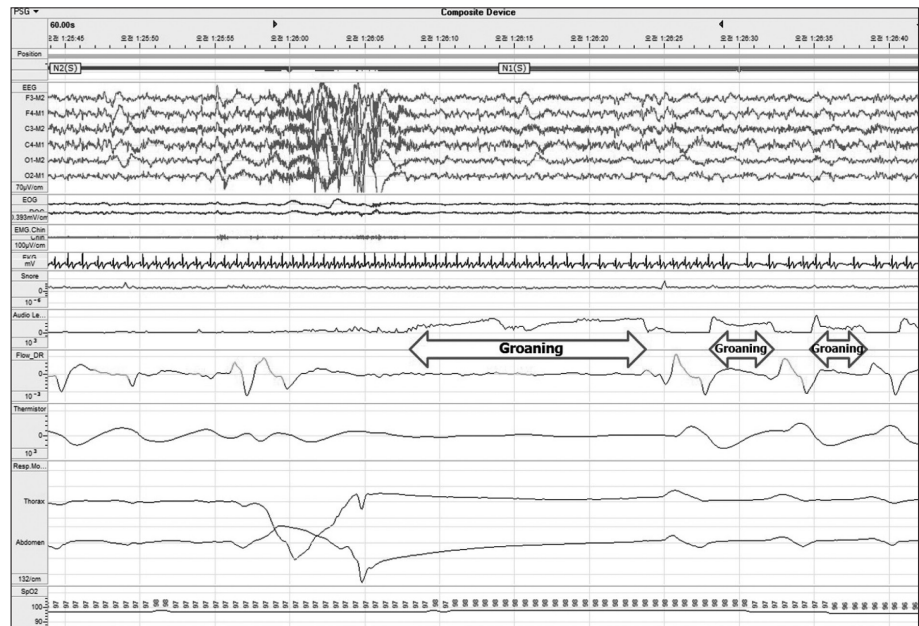


Figure 1. 60-second epoch shows groaning sounds related with prolonged expiration during non-rapid eye movement (NREM) sleep. Nocturnal moaning sounds (microphone) lasting 4–16 seconds and recurred in clusters during prolonged exhalation.

직접적으로 catathrenia와 연관되어 환자가 호소하는 특징적인 증상은 거의 없는 것으로 알려져 있다(American Academy of Sleep Medicine 2005). 가끔 환자가 아침에 일어났을 때 경도의 애성(hoarseness)을 호소할 수는 있다(Iriarte 등 2015). 하지만, 환자 스스로 catathrenia를 인지하고 병원에 내원하는 경우는 흔치 않으며, 보통 배우자, 가족, 친구, 동료 등 같은 공간에서 생활하는 사람들에 의해 수면 중 신음 소리와 같은 이상 소견이 발견되어 진료를 권유받고 병원에 내원한 경우가 거의 대부분이다(American Academy of Sleep Medicine 2014 ; Vetrugno 등 2007). 본 증례의 환자도 군인으로서 부대에서 단체생활을 하던 중 동료 병사들에 의해 수면 중 앓는 소리(신음 소리)가 발견되어 병원에 내원한 경우로 환자 스스로 인지하고 온 경우는 아니었다.

수면 중 신음 소리나 단조로운 발성 등의 catathrenia 의심 증상이 있는 경우에는 다양한 수면 질환들을 감별하고 catathrenia를 확진하기 위해 수면다원검사(레벨1)를 시행하는 것이 바람직하다(Iriarte 등 2015). 앞에서 언급한 바와 같이 catathrenia가 있는 경우 수면다원검사에서 깊은 흡기 후 계속되는 호기와 함께 앓는 소리를 담은 단조롭고 불규칙한 소리가 특징적으로 나타난다(American Academy of Sleep Medicine 2005 ; American Academy of Sleep Medicine 2014). 본 증례에서도 위와 같은 전형적인 소견이 관찰되었는데, 그 횟수는 총 5회였다. 1단계 비렘수면(Stage N1)에서 3회가 관찰되었으며, 2단계 비렘수면(Stage N2)에서는 2회가 관찰되었다(Figure 1). 그러나 주로 렘수면(Stage R) 동안에 catathrenia가 관찰되는 것으로 보고된 기존 문헌들과는 달리, 본 증례에서 렘수면(Stage R) 동안 catathrenia는 관찰되지 않았다.

Catathrenia와 감별해야 할 질환들로는 코골이, 중추성 수면무호흡, 잠꼬대, 사건수면, 수면 중 간질, 수면관련 운동장애 등 여러 가지가 있다(American Academy of Sleep Medicine 2005 ; American Academy of Sleep Medicine 2014 ; Iriarte 등 2015). 특히, 코골이, 중추성 수면무호흡, 잠꼬대는 비교적 쉽게 catathrenia와 혼동될 수 있으므로 수면다원검사 판독시 주의를 기울여 구분할 필요가 있다. 코골이는 흡기와 호기 상관없이 발생할 수 있지만 주로 흡기 중에 규칙적으로 발생하는 양상을 보이므로 호기 중에 비교적 불규칙적으로 떼를 지어 나타나는 catathrenia와는 구별이 가능하고, 중추성 수면무호흡은 느린 호흡(bradypnea)을 바탕으로 한 catathrenia와 혼동될 수 있지만 호흡 중에 단조로운 발성이 나타나므로 구분할 수 있으며, 잠꼬대는 수면 중 상태에서 발생하는 소리라는 점에서 공통점이 있지만 단조롭

고 불규칙적인 발성인 catathrenia와는 달리 자면서 알아들을 수 있는 단어, 문장을 표현하기 때문에 감별이 가능하다.

아직까지 catathrenia를 확실하게 치료할 수 있는 방법에 대해서는 알려진 바 없다(Iriarte 등 2015). Catathrenia 환자들을 대상으로 양압기 치료를 시행해서 좋은 결과를 보고한 문헌들도 있는 반면 양압기 치료에 좋은 결과를 얻지 못한 문헌도 있다(Guilleminault 등 2008 ; Iriarte 등 2015 ; Oldani 등). 따라서, catathrenia 환자에서 양압기 치료는 선택적으로 시행되어야 할 것으로 사료된다. 본 증례에서는 환자가 특별한 증상이 없고 간헐적인 catathrenia 외에 중추성 무호흡을 비롯한 수면호흡장애는 비교적 심하지 않아 경과관찰 하기로 하였다.

요 약

Catathrenia가 환자에게 어떠한 신체적 문제를 유발하며 장기간 지속되는 경우에는 어떠한 합병증을 유발하는지, 자연 경과와 어떻게 되는지 등 예후 관련해서도 아직까지 구체적으로 확인된 바는 없다. 이와 같은 많은 의학적 궁금증들이 해소되기 위해서는 매우 드문 질환이긴 하지만 향후 지속적인 문헌 수집을 통한 질환 분석과 함께 전향적 연구가 필요할 것으로 사료된다.

중심 단어 : Catathrenia · 야간 신음 · 수면다원검사 · 비렘수면.

REFERENCES

- Abbasi AA, Morgenthaler TI, Slocumb NL, Tippmann-Peikert M, Olson EJ, Ramar K. Nocturnal moaning and groaning-catathrenia or nocturnal vocalizations. *Sleep Breath* 2012;16:367-373.
- American Academy of Sleep Medicine. International classification of sleep disorders, 2nd. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine, 2005.
- American Academy of Sleep Medicine. International classification of sleep disorders, 3rd ed. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine, 2014.
- De Roeck J, Van Hoof E. Sleep-related expiratory groaning: a case report. *Sleep Research* 1983;12:377.
- Guilleminault C, Hagen CC, Khaja AM. Catathrenia: parasomnia or uncommon feature of sleep disordered breathing? *Sleep* 2008;31:132-139.
- Iriarte J, Campo A, Alegre M, Fernández S, Urrestarazu E. Catathrenia: respiratory disorder or parasomnia? *Sleep Med.* 2015;16:827-830.
- Oldani A, Manconi M, Zucconi M, Castronovo V, Ferini-Strambi L. Nocturnal groaning: just a sound or parasomnia? *J Sleep Res* 2005;14:305-310.
- Overland B, Akre H, Berdal H, Skatvedt O. Sleep-related groaning: prevalence and characteristics in a cohort of patients with sus-

- pected obstructive sleep apnea. *Acta Otolaryngol* 2012;132:90-95.
- 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.
- Pevernagie DA. Why catathrenia is a parasomnia. *Sleep Med* 2017;32:227-228.
- 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;14:1236-1243.