



저작자표시-비영리-변경금지 2.0 대한민국

이용자는 아래의 조건을 따르는 경우에 한하여 자유롭게

- 이 저작물을 복제, 배포, 전송, 전시, 공연 및 방송할 수 있습니다.

다음과 같은 조건을 따라야 합니다:



저작자표시. 귀하는 원저작자를 표시하여야 합니다.



비영리. 귀하는 이 저작물을 영리 목적으로 이용할 수 없습니다.



변경금지. 귀하는 이 저작물을 개작, 변형 또는 가공할 수 없습니다.

- 귀하는, 이 저작물의 재이용이나 배포의 경우, 이 저작물에 적용된 이용허락조건을 명확하게 나타내어야 합니다.
- 저작권자로부터 별도의 허가를 받으면 이러한 조건들은 적용되지 않습니다.

저작권법에 따른 이용자의 권리는 위의 내용에 의하여 영향을 받지 않습니다.

이것은 [이용허락규약\(Legal Code\)](#)을 이해하기 쉽게 요약한 것입니다.

[Disclaimer](#)

의학석사 학위논문

수면신음 환자의 폐쇄수면무호흡

동반여부에 따른

임상 및 수면다원검사 특성의 차이

Difference in Clinical and Polysomnographic
Characteristics depending on the presence of
Obstructive Sleep Apnea in Catathrenia Patients

울산대학교 대학원

의 학 과

박 관 영

수면신음 환자의 폐쇄수면무호흡
동반여부에 따른
임상 및 수면다원검사 특성의 차이

지도교수 이상암

이 논문을 의학석사 학위논문으로 제출함

2022 년 8 월

울산대학교 대학원

의 학 과

박 관 영

박관영의 의학석사 학위 논문을 인준함

심사위원 임영민 인

심사위원 구용서 인

심사위원 이상암 인

울산대학교 대학원

2022 년 8 월

국문요약

수면신음(Catathrenia)은 수면 중 깊은 흡기 이후, 호기에 동반하는, 신음(groaning) 소리가 반복적으로 나타나는 질환을 말한다. 현재까지 문헌에 보고된 것이 100 건 이하일 정도로 그 빈도가 매우 낮다. 아직 수면신음의 특성 및 병태 생리에 대한 이해가 부족하여 병인과 분류에 대해서 논의가 지속되고 있다. 수면신음에 대한 치료는 아직 불명확한데, 그 중 지속기도양압(continuous positive airway pressure, CPAP) 치료의 경우 그 반응이 좋은 환자도 있는 반면 좋지 않은 경우도 있다. 이 점에 착안하여 저자는 수면신음 환자를 폐쇄수면무호흡(obstructive sleep apnea, OSA) 동반 여부로 두 군으로 나누어 임상적, 수면다원검사적 특징에 대해 분석하여, 수면신음이라는 질환에 대한 이해를 높이고자 한다.

본 연구는 서울아산병원에서 수면다원검사를 시행한 환자 중 수면신음이 확인된 환자를 대상으로한 후향적 연구이다. 해당 환자를 OSA 동반 여부로 OSA(+)군, OSA(-)군 두 개의 환자군으로 나누어 각 군과 전체에 대하여 인구학적 및 임상적 인자 및 수면다원검사에서 측정된 수면 지표에 대해 분석하였다. 자료의 통계적 분석에는 Student's t-test, chi-squared test, Mann-Whitney test, Wilcoxon signed rank test, Spearman의 순위상관분석을 변수의 종류에 따라 적절하게 사용하였다.

전체 수면신음 환자를 OSA 동반 여부에 따라 비교했을 때, 수면다원검사 결과에서 OSA (+)군에서 OSA (-)군에 비해 각성지수는 더 높고, N1 수면시간은 더 긴 반면, N3 수면시간은 더 짧은 것으로 관찰되며 통계적으로 유의하였다. OSA가 동반된 경우에 각성이 더욱 자주 일어나 발생한 차이로 생각된다. 한편, OSA (+)군과 OSA (-)군 사이의 환자 당 수면신음사건의 평균 횟수와 지속시간에서는 유의미한 차이가 없었으나, 수면신음기간의 횟수는 OSA (+)군에서 더 많고, 수면신음기간의 지속시간은 OSA (+)군에서 더 짧은 것으로 확인되었다. 실제 수면다원검사에서도 OSA (+)군에서는 수면무호흡에 1-2 개의 수면신음사건이 따라오는 패턴이 주로 관찰된 반면, OSA (-)군에서는 2-3 개 이상의 수면신음사건이 무리지어 나타나는 패턴으로 이질적인 양상이 관찰되었다.

전체 수면신음 환자를 대상으로 수면신음지수와 인구학적 인자 및 수면다원검사에서 측정된 수면 지표의 상관관계를 분석해 보았을 때 대부분의 지표에서 선형성을 보이지 않았으나 N1 수면시간과는

양의 상관관계, 수면잠복기와는 음의 상관관계를 보였다. 한편, 수면단계 및 수면자세에 따른 수면신음지수와의 상관관계 분석을 했을 때에는 렘(rapid eye movement, REM) 수면에서 더 유의미한 상관관계를 보이고, 수면자세와는 통계적으로 유의미한 상관관계를 보이지 않았는데, 동일한 환자들을 대상으로 AHI 와 수면단계, 수면자세와의 유의성을 분석했을 때 OSA 가 동반된 군에서만 수면 자세와 상관관계를 보인 것과는 대조적이었다.

OSA 동반 여부와 관계없이 렘수면에서 수면신음지수가 높게 나타난 것은 수면신음이라는 질환의 전체적인 특징으로 생각된다. 하지만 OSA 동반 여부에 따라 수면 무호흡에 1-2 개의 수면신음사건이 따라오는 패턴과 2-3 개 이상의 수면신음사건이 무리지어 나타나는 패턴의 이질적인 양상이 존재함을 확인할 수 있었다. 그러므로 수면신음이라는 질환은 단일한 병태생리를 보이는 질환이라기 보다, 이질적인 성격의 질환군의 집합체일 가능성이 있다.

중심 단어 : 수면 중 신음, 렘수면, 수면 자세, 폐쇄수면무호흡

차례

국문요약.....	i
차례.....	iii
표 및 그림 목차.....	iv
서론.....	1
연구대상 및 방법.....	4
연구결과.....	8
고찰.....	20
결론.....	23
참고문헌.....	24
영문요약.....	26

표 및 그림 목차

Table 1. Demographic and polysomnographic characteristics of subjects

Table 2. Distribution of catathrenia events according to 3% oxygen desaturation, REM sleep and sleeping position for OSA (+) and OSA (-) groups

Table 3. Comparison of catathrenia-related indices and depending on the presence of OSA

Table 4. Comparison of number of catathrenia events per period depending on the presence of OSA

Table 5. Correlations between catathrenia event index and demographic, polysomnographic indices age depending on the presence of OSA

Table 6. Effects of sleep stage and sleep position on CEI and AHI in patients with catathrenia

Figure 1. A typical example of catathrenia event in polysomnography

Figure 2. Definition of catathrenia event and catathrenia period in this research

Figure 3. An example of catathrenia events in OSA (+) group

Figure 4. An example of catathrenia events in OSA (-) group

Figure 5. Correlation between N1 sleep time, sleep latency and catathrenia event index

서론

수면신음(Catathrenia)은 수면 중 깊은 흡기 이후, 호기에 동반하여 나타나는, 신음 (groaning) 소리가 반복적으로 나타나는 질환을 말한다.(1) 수면신음은 안면이나 상기도 폐질환이 없는 경우에도 나타날 수 있는 흔치 않은 수면 질환으로, 1983년 De Roeck과 van Hoof 에 의해 처음 보고된 이후,(2) 현재까지도 문헌에 보고된 것이 100건 이하로 확인되는 드문 질환이다.(2-10) 감별해야 할 질환으로는 코골이(snoring), 협착음(stridor), 수면 연관 후두경련(sleep-related laryngospasm), 중추수면무호흡(central sleep apnea) 같은 호흡계 증상들과, 경련, 잠꼬대 같은 사건수면(parasomnia) 등이 있다.

현재까지 알려진 수면다원검사에서의 수면신음의 특징은 깊은 흡기 이후 뒤따르는 길어진 호기의 형태로 나타난다는 점이다(Figure 1). 이에 따라 느린 호흡(bradypnea)이 관찰된다는 점에서는 중추수면무호흡과 유사해 보이기도 한다. 호기 때에 '그르렁' 혹은 '공' 등의 신음 소리가 나며, 이는 영어 'a', 'e', 'o' 발음과 비슷한 양상이다.(3, 11) 발병 연령대는 소아, 청소년, 성인으로 다양하게 나타난다고 하는데, 국제수면질환분류(International Classification of Sleep disorders, ICSD) 제2판에 따르면 발병 연령이 9 ± 10 세로 나타났으나(12) Mayo clinic의 보고에 따르면 47.9 ± 15.1 세로 나타나기도 했다(3). 주로 렘(rapid eye movement, REM) 수면에 빈번하다고 알려져 있으며,(6) 이에 따라 야간 수면의 후반부에서 주로 관찰된다.(13) 지속 시간은 2초에서 49초 사이로 관찰된다.(12) 그 외, 수면신음이 발생할 때 나타나는 소리가 굉장히 크고, 같이 수면하는 사람은 방해를 받거나 걱정을 하기도 하지만 정작 환자 본인은 문제를 잘 못 느끼는 경우가 많다(1).

수면신음의 병인과 분류에 대한 논의는 현재까지도 지속되고 있다. ICSD 제1판(1990)에서는 포함되지 않던 질환이었으나(14) 제2판에서는 기타 사건수면(other parasomnia)으로 분류되었다.(12) 당시에는 수면 때 규칙적인 신음 소리를 내는 병력이 있고, 수면다원검사에서 주로 렘수면에서 나타나는 호흡의 불규칙성이 있을 경우를 진단 기준으로 하였는데 비교적 진단의 범위가 넓은 편이었다. 하지만 그 이후 최신의 ICSD 제3판에서는 수면신음을 호흡질환의 일종으로 분류하였다.(1) 그 근거로 수면신음이 호흡과 연관된 현상으로 앞서 언급한 중추수면무호흡에서 나타나는 느린 호흡의 패턴을 보인다는 점이 제시되고 있다. 하지만 수면신음에서 탈산소화를 잘 동반하지 않는다는 점은 이에 호

흡질환의 특성과는 잘 맞지는 않는다.(15)

한편, 수면신음의 치료로는 지속기도양압치료와 약물 치료 등이 시도되었는데 아직까지 그 효과는 불명확하다. 특히 지속기도양압치료에 대한 반응을 살펴보았을 때 지속기도양압치료를 통해 수면신음이 치료되기도 하였으나, 그렇지 못한 경우도 있었다(3, 4, 6, 16-18) 이러한 점에서 지속기도양압치료를 잘 반응하는 OSA와 수면신음을 비교해 보고, 수면신음 환자를 OSA 동반 여부를 기준으로 나누어 분석해 보는 것은 의미가 있을 것으로 생각된다. 특히, OSA는 일반적으로 렘수면 중에는 비렘수면에 비해 상기도 확장근의 근 긴장도가 저하되고 상기도 저항이 증가하여 더 쉽게 나타날 수 있고(렘수면 의존성),(19) OSA의 경우 기도 조직에 미치는 중력의 효과로 인해 수면 시 자세가 앙와위(supine)인지 아닌 지 여부가 중요한 요소로 생각된다는 특징(자세 의존성)이 있다.(20, 21) 이러한 렘수면 의존성과 자세 의존성 등의 특징을 수면신음 환자에서도 분석해 보는 것은 의미가 있을 것으로 생각된다.

따라서 본 연구에서는 수면신음의 질환적 특징에 대한 이해를 높이기 위해 수면신음환자를 OSA 동반여부에 따라 두 군으로 나누어 각 군과 전체 집단의 임상적 특성과, 렘수면 의존성, 자세 의존성을 포함한 수면다원검사적 특징을 분석하여 아직까지 특성 및 병태생리에 대한 논란이 있는 수면신음이라는 질환에 대한 이해를 높이고자 한다.

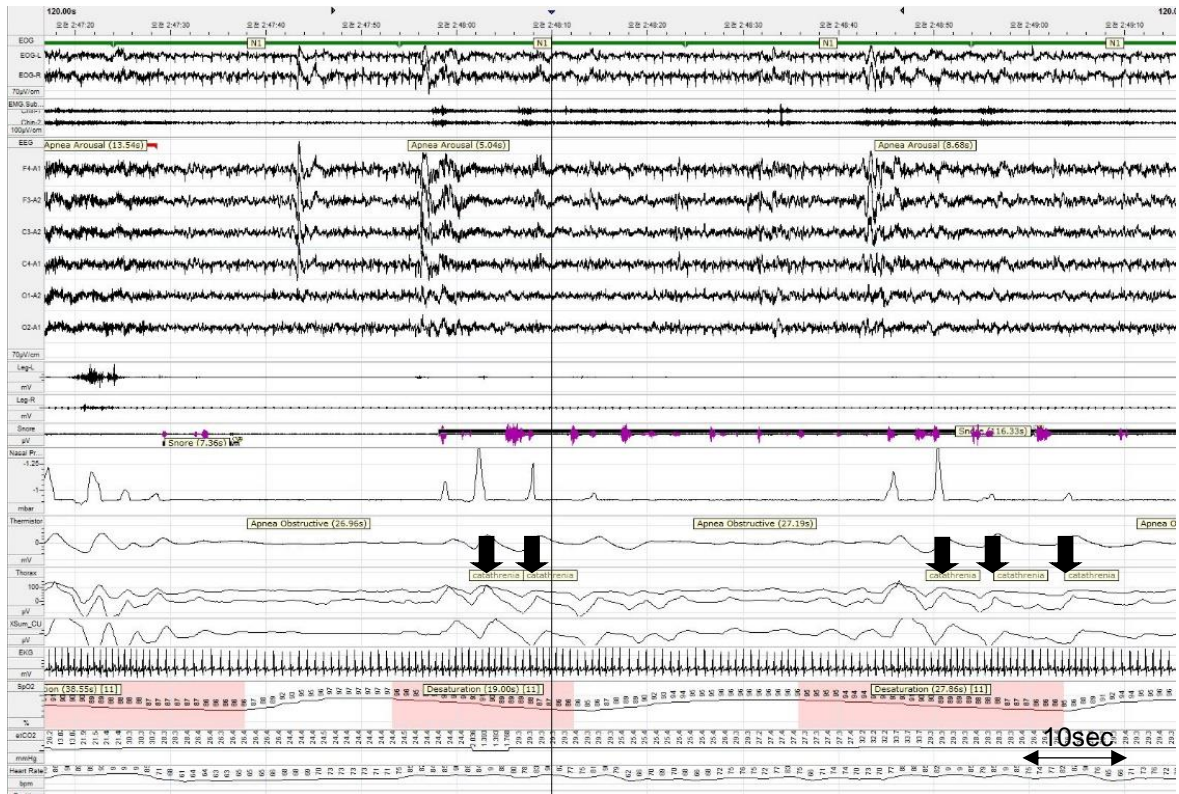


Figure 1. A typical example of catathrenia event in polysomnography
 A typical polysomnographic description of catathrenia includes a deep inhalation followed by a protracted exhalation, during which moaning or groaning sounds are produced.

연구대상 및 방법

1. 연구대상

본 연구는 2010년 3월부터 2020년 7월까지 서울아산병원에서 수면다원검사를 시행한 환자 중 수면신음이 확인된 환자를 대상으로 후향적으로 분석하였다. 수면신음의 진단은 수면다원검사에서 깊은 흡기 이후 뒤따르는 길어진 호기의 형태의 호흡양상이 나타나는 현상이 나타날 경우 진단하였다. 수면다원검사를 시행한 전체 8726명 환자 중 25명(0.3%)의 환자에서 수면신음이 확인되었고, 그 중 데이터가 소실된 2명을 제외한 23명을 대상으로 분석을 시행하였다. 분석 대상이 된 환자 중 2명의 경우 수면다원검사를 2회 시행하였는데 이들의 경우 처음 수면신음이 진단된 수면다원검사를 분석하였다. 총 23명의 환자를 대상으로 수면신음의 특징을 분석하기 위해 OSA 동반 여부에 따라 OSA (+)군과 OSA (-)군으로 분류하였다.

2. 자료수집

가. 연구대상자의 인구사회학적 특성 및 임상적 평가

연구대상자의 연령, 성별과 같은 인구사회학적 특성과 검사를 시행한 목적 및 동반된 내과적 질환과 같은 임상평가는 서울아산병원 의무기록을 통하여 수집하였다. 연구대상자의 연령은 수면다원검사를 시행했을 때의 연령을 기준으로 하였고, 체질량지수(body mass index)는 수면다원검사 시행 시 측정된 키, 몸무게를 기준으로 하였다. 주관적 주간졸음증의 평가는 엠티스졸음척도(Epworth sleepiness scale)를 사용하였다. 총 8개 항목에 대해 각각 0-3점으로 환자 스스로가 평가하여 총점은 0-24점으로 평가한다. 점수가 높을수록 주간 졸음이 심한 것으로 평가하며, 과다주간졸음(excessive daytime sleepiness)은 엠티스졸음척도가 11점 이상일 경우로 정의하였다.(22, 23).

나. 수면다원검사

비디오 수면다원검사 기구로는 Embla N-7000 (Natus Neurology Incorporated, RemLogic Ver. 3.2, Middleton, USA)을 사용하였다. 비디오 수면다원검사 기구는 6 채널 뇌파(C3-M2, C4-M1, O1-M2, O2-M1, F3-M2, F4-M1), 안전도 2 개(E1-M2, E2-M1), 표면근전도(턱끝밑근, 앞정강근), 심전도, 입코서미스터 (oronasal thermistor), 비강압력삽입관(nasal pressure cannula), 맥박산소측정기 (pulse oximetry), 흉부와 복부의 압력측정기(piezoelectric strain gauge)로 구성되었다. 환자의 수면을 평가하기 위해 수면다원검사와 동기화된 주야간 적외선 카메라(400 만 화소, 돔형, 팬/틸트/줌제어)를 환자의 발 쪽 방향으로 방 구석에 설치하였다.

수면신음은 기존의 앞선 연구에서와 같이 수면다원검사에서 깊은 흡기 이후에, 신음소리와 유사한 단조로운 발성이 동반되기도 하는 긴 호기가 나타날 경우로 정의하였다.(6, 24) 실제 수면다원검사에서는 흉부 압력측정기를 기준으로 흡기와 호기를 확인하여 호흡의 패턴을 평가하였고, 발성 동반 여부는 카메라 녹화된 동영상을 청취하여 평가하여 앞서 제시한 수면신음의 정의에 합당하는지 확인하였다. 수면신음은 독립적인 사건으로 나타나기도 하지만 여러 사건이 무리지어(clustered) 나타나기도 하는데, 각각의 독립적인 사건을 수면신음사건(catathrenia event)로 정의하였고, 연이어 무리지어 나타나는 경우 그 집합체를 수면신음기간(catathrenia period)로 정의하였다(Figure 2). 수면신음기간은 수면신음사건 사이에 정상 호흡이 3 회 이하인 경우에는 하나의 수면신음기간으로 판단하였다. 평가수면신음지수(catathrenia event index)는 단위 시간 당 발생한 수면신음사건 횟수로 계산하였다. 또한, 렘수면 의존성과 자세 의존성을 평가하기 위해 렘수면 수면신음지수(REM catathrenia event index)는 렘수면 단위 시간 당 발생한 수면신음사건 횟수로 계산하였고, 비렘수면 수면신음지수(NREM catathrenia event index), 양와위 수면신음지수(supine catathrenia event index), 비양와위 수면신음지수(nonsupine catathrenia event index)는 각각 비렘수면, 양와위수면, 비양와위수면 단위 시간 당 발생한 수면신음사건의 횟수로 계산하였다.

그 외 수면다원검사 결과의 평가는 기본적으로 미국수면학회 평가기준(American Academy of Sleep Medicine, 2012)에 의거하여 해석하였다.(25) 무호흡은 입코서미스터로 측정하여 호흡 진폭이 90% 이상 감소하면서 10 초 이상 지속할 경우로, 저호흡은 비강압력삽입관으로 측정하여 호흡 진폭이 30%

이상 감소하면서 10 초 이상 지속하고 3% 이상 산소포화도 감소가 동반되거나 미세각성이 동반되는 경우로 정의한다. 이를 토대로 무호흡-저호흡지수(apnea-hypopnea index, 이하 AHI)는 시간 당 무호흡과 저호흡을 합한 횟수로 계산하였다. 산소불포화지수(oxygen desaturation index)는 기저상태와 비교했을 때 단위시간당 혈중산소포화도가 3% 이상 감소하는 횟수를 계산하였다. 최저동맥혈중산소포화도는 수면다원검사 중 산소포화도로 측정된 최소값으로 하였다. 그 외에 총각성지수는 시간 당 전체 각성의 횟수로 계산하였다. 이외 총 수면시간(total sleep time), 수면효율(sleep efficiency), 수면잠복기(sleep latency), 입면후각성(wake after sleep onset, WASO), 렘수면 시간, 비렘수면 (N1, N2, N3) 시간, 수면자세별 시간을 수면 인자로 측정하였다.

3. 통계학적 분석

수면신음 환자에서 나타나는 임상 및 인구학적 특성과, 수면다원검사 상 특성을 분석하기 위해 수면신음 환자 전체에 대한 통계 분석과 OSA 동반 여부에 따라 환자군으로 나눈 통계 분석으로 진행하였다. 변수가 정규분포를 따르는 경우 평균값과 표준편차로 제시하였고, 정규분포를 따르지 않는 경우 중위수와 사분범위로 제시하였다.

두 군의 평균값에 대한 크기 비교를 위해서 정규성을 따른다고 가정할 수 있는 경우에는 Student t-test를 사용하였고, 정규성을 따른다고 볼 수 없는 경우에는 비모수검정으로 Mann-Whitney test를 사용하였다. 한편, 변수 간의 관계를 분석하기 위해서 정규성을 따른다고 볼 수 있을 때에는 chi-squared test를 시행하였고, 정규성을 따른다고 볼 수 없는 경우에는 짝지은 변수 분석을 위해 Wilcoxon signed rank test를 사용하였고, 연속형 변수 사이의 선형성 분석을 위해 Spearman의 순위상관분석을 사용하였다. 상기의 통계 분석 시 p -value <0.05 인 경우에 통계학적으로 유의한 것으로 판단하였다. 자료의 통계 분석에는 SPSS Ver. 22. (IBM Corporation, Armonk, NY, USA)을 이용하였다.

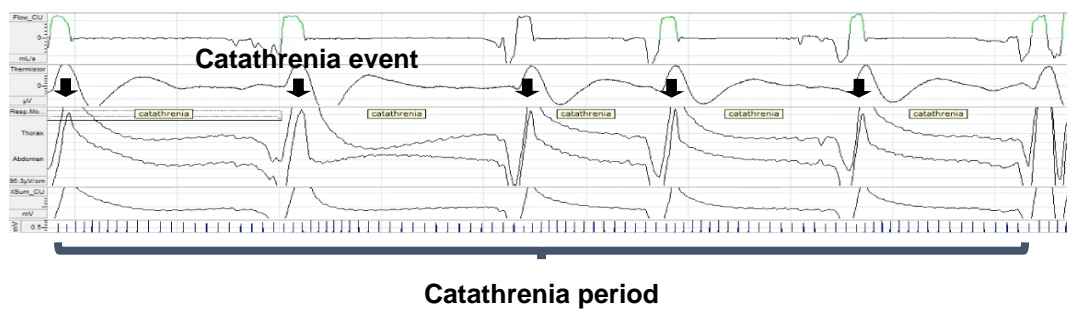


Figure 2. Definition of catathrenia event and catathrenia period in this research
 A single event of catathrenia is defined as *catathrenia event*, and a cluster of continuous catathrenia events is defined as *catathrenia period*.

연구결과

1. 연구 대상자의 일반적 특성 및 수면다원검사 소견

연구기간 동안 서울아산병원에서 수면다원검사를 시행한 환자는 총 8726 명으로 그 중 남자는 6641 명 (76.1 %), 여자는 2085 명 (23.9 %)으로 확인되었다. 수면다원검사를 시행한 전체 환자의 평균 연령은 45.0 세로 확인되었다. 이 중 수면신음이 확인되어 연구 포함된 환자는 총 23 명 (0.26%)으로, 그 중 남자는 12 명, 여자는 11 명으로 나타났다. 연구에 포함된 수면신음 환자의 평균 연령은 34.4 세로 나타났고, 평균 체질량지수는 24.3 kg/m² 이었다. 엽위스졸음척도는 총 23 명 중 19 명에서만 설문이 진행되었는데, 평균은 8.0 으로 나타났다. 검사를 시행한 주된 이유는 '수면 중 신음 소리'가 6 명 (26.1%), '수면 중 무호흡'이 14 명 (60.9%), '코골이'가 2 명 (8.7%), '과다 주간 졸음'이 1 명 (4.3%)으로 확인되었다. 대상자 중 내과적 질환이 동반된 경우는 총 3 명으로, 고혈압이 3 명, 만성콩팥병을 동반한 당뇨가 1 명, 뇌내출혈(intracerebral hemorrhage)이 1 명이었다. 수면다원검사에서는 AHI 는 평균 3.3 으로 확인되었고, 평균 렘수면시간은 68.3 분, 평균 비렘수면시간은 299.1 분으로 확인되었고 다른 수면인자들의 평균치는 Table 1 와 같다.

전체 환자를 OSA 동반 여부에 따라 분류하여 비교한 결과는 다음과 같다. OSA (+) 군은 11 명이었고, OSA (-) 군은 12 명이었다. 연구기간 동안 본원에서 수면다원검사를 시행한 환자 8726 명 중 OSA 가 동반된 환자 6617 명 중에 11 명 (0.17%), OSA 가 동반되지 않은 2109 명 중 12 명 (0.57%)에서 수면신음이 확인되었다. 남녀비율은 OSA (+) 군 11 명 중 남자는 8 명, 여자는 3 명이고, OSA (-) 군 12 명 중 남자는 4 명, 여자는 8 명으로, OSA (+) 군에서 남자의 비율이 OSA (-) 군에서 더 높았으나 통계적으로 유의하지는 않았다($p=0.059$). 연령은 OSA (+) 군에서는 평균 43.2 세, OSA (-) 군에서는 평균 26.3 세로 두 군 간의 유의미한 연령의 차이가 있었다($p=0.001$) (Table 1). 체질량지수는 전체 환자에서는 24.3 kg/m² 로 OSA (-) 군보다 OSA (+) 군에서 유의하게 높게 확인되었다 ($p=0.001$) (Table 1). 수면다원검사에서는 AHI (23.7/h vs. 1.2/h, $p<0.001$), 산소불포화지수 (20.4/h vs. 1.4/h, $p<0.001$), 총각성지수 (30.9/h vs. 15.7/h, $p=0.002$), N1 수면시간 (118.1mins vs. 55.8mins, $p=0.003$) 이 OSA (+) 군이 OSA (-) 군 보다 더 크게 나타났고 통계적으로 유의하였다(Table 1). 한편, N3 수면시간은 OSA

(+)군 보다 OSA (-)군에서 더 큰 것으로 확인되었고 통계적으로 유의하였다(8.0 mins vs. 56.3 mins, $p=0.003$) (Table 1). 그 외 다른 인자에서는 두 군 간 통계적으로 유의미한 차이는 없었다 (Table 1).

Table 1. Demographic and polysomnographic characteristics of subjects

	Total (n = 23)	OSA (+) (n = 11)	OSA (-) (n = 12)	p value
Age, years	34.4 (12.9)	43.2 (11.2)	26.3 (8.3)	0.001
Sex, male	12 (52.2)	8 (72.7)	4 (33.3)	0.059
BMI, Kg/m ²	24.3 (4.8)	27.5 (3.9)	21.4 (3.5)	0.001
Medical comorbidities	3 (13.0)	3 (27.3)	0 (0.0)	0.093
ESS scores ^a	8.0 (5.4)	9.5 (6.3)	6.9 (4.7)	0.442
PLMI >15 /h	1 (4.3)	1 (9.1)	0 (0.0)	0.740
AHI, /h	3.3 (1.1, 23.7)	23.7 (9.6, 67.0)	1.2 (0.8, 1.9)	<0.001
3% oxygen desaturation index, /h	3.5 (1.2, 20.4)	20.4 (10.8, 60.7)	1.4 (0.3, 2.1)	<0.001
Minimum SaO ₂ , %	90.0 (87.0, 94.0)	87.0 (76.0, 88.0)	93.5 (93.0, 94.0)	<0.001
Total arousal index, /h	21.2 (15.0, 30.9)	30.9 (21.2, 41.1)	15.7 (9.3, 23.6)	0.002
Sleep architecture				
TST, min	369.3 (41.5)	361.5 (18.3)	376.5 (55.0)	0.085
NREM, min	299.1 (36.3)	299.0 (26.8)	299.3 (44.6)	0.880
N1, min	85.6 (54.40)	118.1 (62.0)	55.8 (20.0)	0.003
N2, min	169.6 (50.4)	157.6 (55.4)	180.7 (44.8)	0.211
N3, min	32.0 (8.0, 69.5)	8.0 (1.5, 30.5)	56.3 (34.8, 72.0)	0.003
REM, min	68.3 (29.9)	60.7 (28.7)	75.2 (30.6)	0.314
Supine sleep, min	265.4 (102.7)	255.3 (116.1)	274.7 (93.0)	0.833
Nonsupine sleep, min	104.3 (102.5)	106.2 (117.3)	102.6 (92.0)	0.786
Sleep latency, min	5.5 (1.5, 9.5)	5.5 (0.5, 8.0)	5.5 (2.0, 9.5)	0.413
WASO, min	11.5 (6.5, 32.0)	17.0 (9.5, 32.0)	8.9 (3.9, 37.8)	0.413
Sleep efficiency, %	95.5 (89.7, 97.3)	30.9 (21.2, 41.1)	15.7 (9.3, 23.6)	0.880

Data are presented as numbers and percentages, means and standard deviations, or medians and interquartile range.

AHI, apnea-hypopnea index; BMI, body mass index; ESS, Epworth Sleepiness Scale; n, number; OSA, obstructive sleep apnea; OSA (+), patients with OSA; OSA (-), patients without OSA; PLMI, periodic limb movements index; REM, rapid eye movement; SaO₂, arterial oxygen saturation; TST, total sleep time; WASO, wake after sleep onset.

^a n = 19

2. 연구 대상자에서 나타난 수면신음의 일반적 특성

가. 3% 산소불포화도, 수면단계, 수면자세에 따른 수면신음사건의 분포

전체 23 명의 환자에서 관찰된 모든 수면신음사건 (n=1696)의 산소불포화 동반여부, 수면단계, 수면자세 별 분포는 다음과 같다. 총 1696 회의 수면신음사건이 관찰되었고, 3% 산소불포화가 일어난 수면신음사건은 201 회, 일어나지 않은 수면신음사건은 1495 회이었다(Table 2). 렘수면에서 나타난 수면신음사건은 697 회, 비렘수면에서 나타난 수면신음사건은 999 회이었고, 양와위에서 나타난 수면신음사건은 1287 회, 비양와위에서 나타난 수면신음사건은 409 회이었다(Table 2).

이에 대해 OSA 동반 여부에 따라 군을 나누어 분석해 보았을 때, OSA 동반 여부와 3% 산소불포화 발생여부는 유의미한 연관성이 있었고($p < 0.001$), 그 오즈비는 20.1 로 확인되었다. 한편, OSA 동반 여부와 수면자세는 연관성이 없었다($p = 0.861$)

Table 2. Distribution of catathrenia events according to 3% oxygen desaturation, REM sleep and sleeping position for OSA (+) and OSA (-) groups

	OSA (+) (n=881)	OSA (-) (n=815)	p value
3% Oxygen desaturation	190 (21.6%)	11 (1.3%)	<0.001
REM	299 (33.9%)	398 (48.8%)	
NREM			
N1	523 (59.4%)	356 (43.7%)	<0.001
N2	57 (6.5%)	47 (5.8%)	
N3	2 (0.2%)	14 (1.7%)	
Supine	667 (75.7%)	620 (76.1%)	0.861

Data are presented as numbers and percentages
OSA, obstructive sleep apnea; OSA (+), patients with OSA; OSA (-), patients without OSA; REM, rapid eye movement

나. 수면신음관련 인자들의 OSA 동반 여부에 따른 비교

연구 대상자별로 분석해 보았을 때에는 수면신음사건은 평균 59.0 회으로 나타났고, 수면신음사건의 지속시간은 평균 13.8 초로 확인되었다(Table 3). 수면신음지수는 평균 9.4/h 으로 나타났는데, 렘수면 수면신음지수는 24.4/h, 비렘수면 수면신음지수는 20.6/h, 양와위 수면신음지수는 11.8/h, 비양와위 수면신음지수는 9.2/h 으로 확인되었다(Table 3).

다음으로 23 명을 OSA (+) 군, OSA (-) 군으로 나누어 수면신음사건을 분석해 보았다. 두 군 간의 수면신음사건의 횟수나 지속시간의 유의미한 차이가 없었지만, 수면신음기간의 횟수와 지속시간을 비교해 보았을 때는 OSA (+) 군에서 수면신음기간의 횟수가 더 많고 (OSA (+): 49.2 회, OSA (-): 19.8 회, $p=0.032$), 수면신음기간의 지속시간은 OSA(+) 군에서 더 짧은 것으로 확인되었고 (OSA (+): 29.3 초, OSA (-): 50.6 초, $p=0.013$) 이는 각각 통계적으로 유의하였다(Table 3). 이에 각 군의 수면신음기간을 대상으로 한 개의 수면신음기간에 평균적으로 몇 개의 수면신음사건이 포함되어 있는지 추가 분석을 해 보았을 때, OSA(+) 군에서는 한 개의 수면신음기간 당 평균 1.62 개의 수면신음사건이, OSA(-) 군에서는 한 개의 수면신음기간 당 평균 3.34 개의 수면신음사건이 포함되어 있었고 그 차이는 통계적으로 유의했다($p<0.001$) (Table 4). 이에 실제 수면다원검사에서 나타나는 수면신음의 패턴도 OSA (+)군에서는 수면무호흡에 1-2 개의 수면신음사건이 따라오는 패턴이 주로 관찰된 반면, OSA (-)군에서는 2-3 개 이상의 수면신음사건이 무리지어 나타나는 패턴으로 주로 관찰되었다. (Figure 3, 4)

그 외 두 환자군 간에 수면신음사건의 횟수, 지속시간, 수면신음지수, 렘수면 수면신음지수, 비렘수면 수면신음지수, 양와위 수면신음지수에서 유의미한 차이가 없었다(Table3). 한편, 비양와위 수면신음지수는 OSA (+)군에서 OSA (-)군에 비해 높게 나타났고 통계적으로 유의하였다($p=0.016$) (Table 3).

Table 3. Comparison of catathrenia-related indices and depending on the presence of OSA

	Total (n = 23)	OSA (+) (n = 11)	OSA (-) (n = 12)	<i>p</i> value
Number of CEs	59.0 (31.0, 120.0)	65.0 (36.0, 142.0)	45.5 (21.3, 107.5)	0.288
Duration of CEs, sec	13.8 (10.8, 17.5)	15.4 (10.8, 17.9)	12.5 (10.7, 16.7)	0.487
Number of CPs	33.8 (13.0, 40.0)	49.2 (23.0, 64.0)	19.8 (5.3, 28.3)	0.032
Duration of CPs	40.4 (24.6, 46.1)	29.3 (14.5, 40.3)	50.6 (35.4, 55.2)	0.013
CEI, /h	9.4 (4.0, 18.2)	11.2 (5.8, 23.3)	7.3 (3.3, 16.3)	0.260
REM CEI, /h	24.4 (12.3, 39.6)	27.4 (16.3, 42.1)	20.6 (4.6, 37.8)	0.347
NREM CEI, /h	6.9 (1.8, 12.2)	8.4 (3.6, 15.7)	3.2 (1.8, 12.1)	0.347
Supine CEI, /h	11.8 (5.1, 22.6)	12.2 (7.1, 26.9)	10.0 (2.8, 21.0)	0.456
Nonsupine CEI, /h	9.2 (3.8, 14.2)	11.1 (9.1, 18.3)	4.7 (3.1, 9.9)	0.016

Data are presented as numbers and percentages or as medians and interquartile ranges. CE, catathrenia event; CEI, catathrenia event index; CP, catathrenia period; IQR, interquartile range; NREM, non-rapid eye movement; OSA, obstructive sleep apnea; OSA (+), patients with OSA; OSA (-), patients without OSA; REM, rapid eye movement.

Table 4. Comparison of number of catathrenia events per period depending on the presence of OSA

	Total (n = 782)	OSA (+) (n = 545)	OSA (-) (n = 237)	<i>p</i> value
Number of CEs	2.14 (1.00, 2.00)	1.62 (1.00, 2.00)	3.34 (1.00, 4.00)	<0.001

Data are presented as numbers and percentages or as medians and interquartile ranges. CE, catathrenia event; OSA, obstructive sleep apnea; OSA (+), patients with OSA; OSA (-), patients without OSA

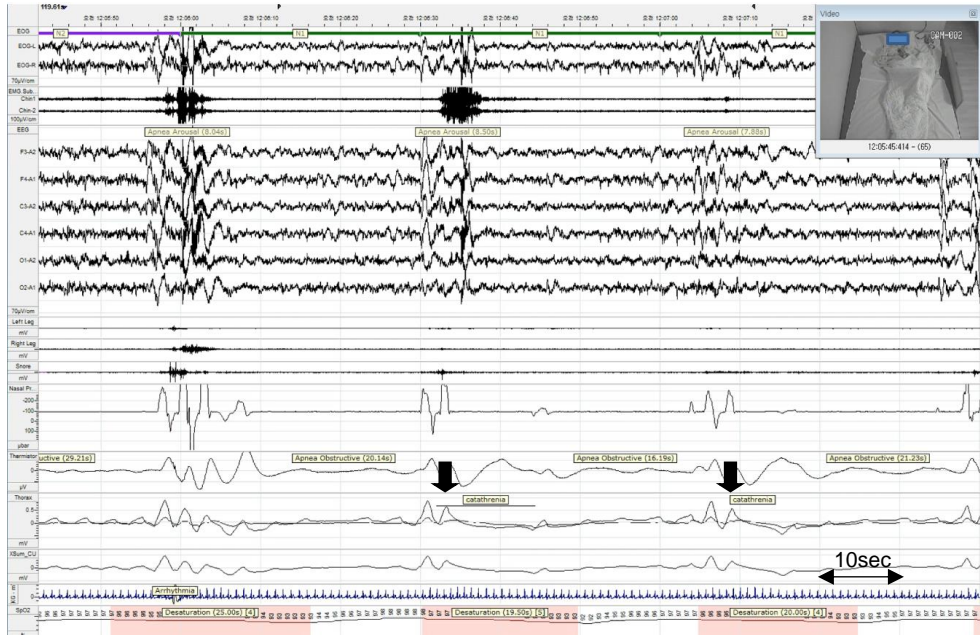


Figure 3. An example of catahrenia events in OSA (+) group
 Single catahrenia event is followed by each apnea events. Arrow means each of a single catahrenia event

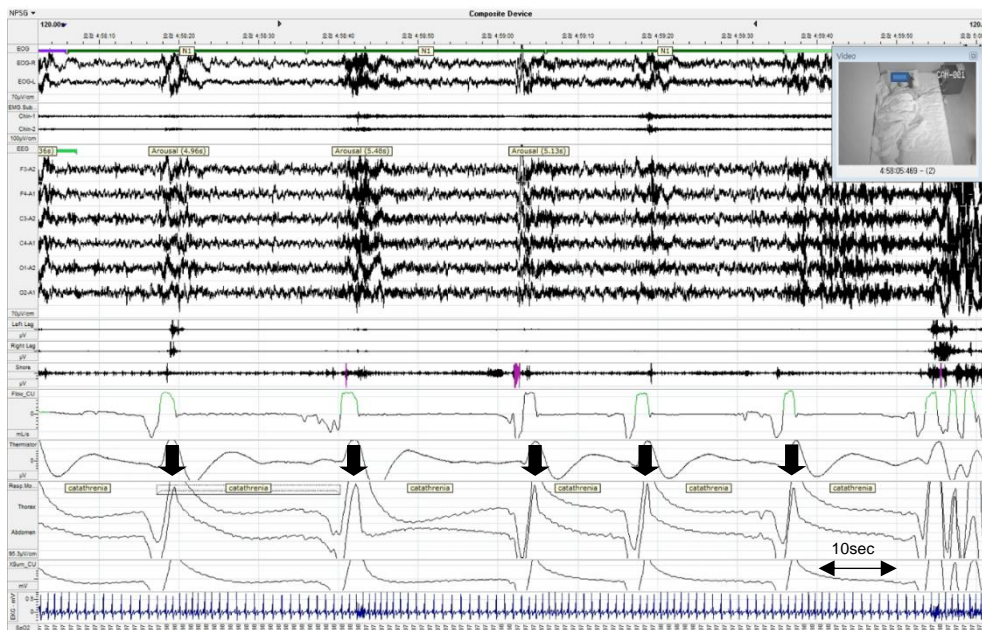


Figure 4. An example of catahrenia events in OSA (-) group
 A catahrenia period which is consist of clustered several catahrenia events is observed. Arrow means each of a single catahrenia event.

3. 수면신음지수와 각 환자의 인구통계학적 인자 및 수면 인자 사이의 관계

가. 수면신음지수와 각 환자의 인자간의 단조성 분석

23 명의 수면신음환자의 수면다원검사 결과로부터 계산된 수면신음지수와 각 환자의 인구학적 인자 및 수면인자 사이의 관계를 분석해 보았다. 그 결과 수면신음지수는 N1 수면 시간과 양의 상관관계 (Spearman's $\rho=0.417$, $p=0.048$) (Figure 5), 수면 잠복기와 음의 상관관계 (Spearman's $\rho=-0.533$, $p=0.009$) (Figure 4)를 보이며 통계적 유의성을 가졌다. 그 외 다른 변수들의 경우 통계적 유의성을 보이지 않았다(Table 5).

한편, OSA 동반 여부에 따라 각 인자와의 상관관계를 분석해 보았을 때 여러 인자 중 나이의 경우 나이만 OSA (-)군에서 수면신음지수와 통계적으로 유의한 양의 상관관계를 보였다 ($p=0.014$) 다른 인자 및 지표에서는 수면신음지수와 연관성 보이지 않았다(Table 5)

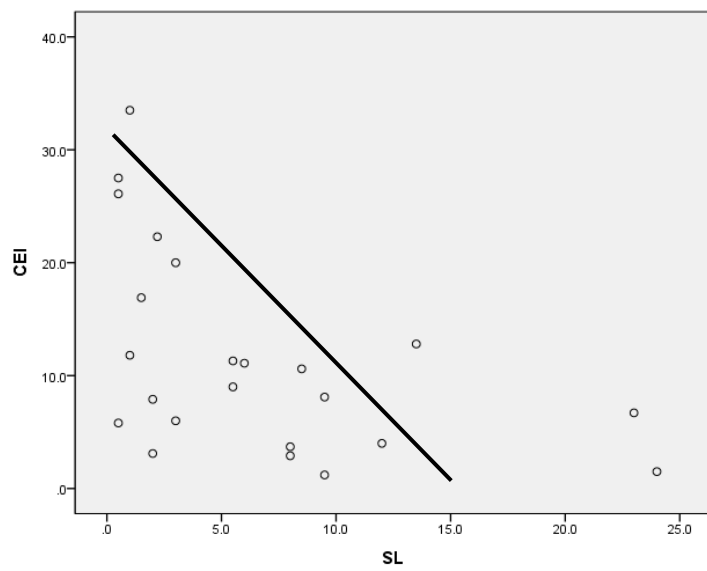
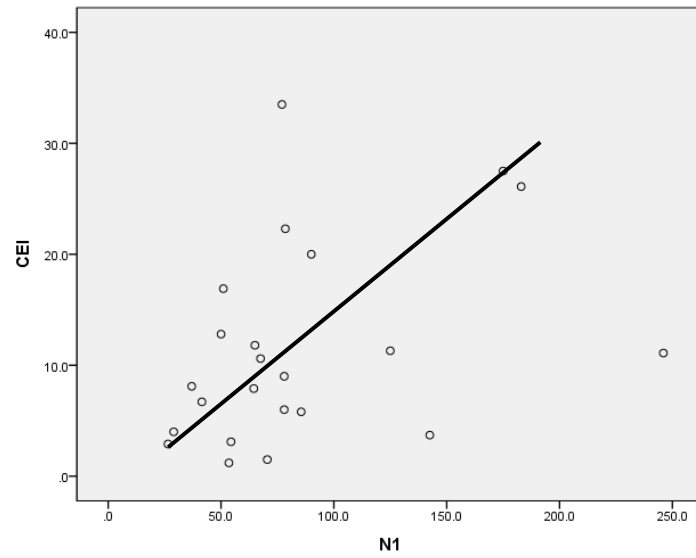


Figure 5. Correlation between N1 sleep time, sleep latency and catathrenia event index
 CEI and N1 sleep time showed positive correlation whereas
 CEI and SL showed negative correlation
 (CEI: Catathrenia event index, N1: N1 sleep time, SL: sleep latency)

Table 5. Correlations between catathrenia event index and demographic, polysomnographic indices age depending on the presence of OSA

Catathrenia event index, /h						
	OSA (+) (n=11)		OSA (-) (n=12)		Total (n=23)	
	ρ	p	ρ	p	ρ	p
Age, years	-0.251	0.457	0.684	0.014	0.293	0.175
BMI, Kg/m ²	0.128	0.707	-0.358	0.253	0.302	0.162
ESS scores	-0.214	0.610	0.380	0.249	0.178	0.465
AHI, /h	0.382	0.247	-0.193	0.548	0.268	0.216
3% oxygen desaturation index, /h	0.364	0.272	-0.210	0.512	0.265	0.221
Minimum SaO ₂ , %	-0.311	0.352	0.053	0.871	-0.317	0.140
Total arousal index, /h	0.327	0.326	0.189	0.557	0.338	0.115
Sleep architecture						
TST, min	-0.136	0.689	0.413	0.182	0.077	0.231
N1, min	0.182	0.593	0.503	0.095	0.417	0.048
N2, min	-0.445	0.170	0.287	0.366	-0.129	0.556
N3, min	0.073	0.832	-0.392	0.208	-0.280	0.195
REM, min	0.297	0.405	0.136	0.689	0.006	0.646
Supine sleep, min,	-0.018	0.958	-0.077	0.812	-0.064	0.771
Nonsupine sleep, min,	0.005	0.989	0.126	0.697	0.060	0.784
Sleep latency, min	-0.561	0.073	-0.453	0.139	-0.533	0.009
WASO, min	-0.373	0.259	0.000	1.000	-0.132	0.546
Sleep efficiency, %	0.464	0.151	0.266	0.404	0.376	0.077

AHI, apnea-hypopnea index; BMI, body mass index; ESS, Epworth Sleepiness Scale; OSA, obstructive sleep apnea; OSA (+), patients with OSA; OSA (-), patients without OSA; REM, rapid eye movement; SaO₂, arterial oxygen saturation; TST, total sleep time; WASO, wake after sleep onset; ρ , Spearman correlation coefficient.

나. 수면신음지수와 수면단계, 수면자세의 짝지은 표본분석

한편 환자를 OSA 동반 여부에 따라 두 환자군으로 나누어 수면신음지수와 수면단계, 수면자세와의 상관관계를 분석하였을 때는 수면신음은 OSA의 동반 여부와 상관없이 렘수면 시에 많이 나타났다. 이는 전체 환자를 대상으로 분석하였을 때도 통계적 유의성을 가졌으며 ($p < 0.001$), OSA (+)군 ($p = 0.010$)과 OSA (-)군 ($p = 0.023$) 각각에서도 통계적 유의성을 가졌다(Table 6). 한편 수면 자세에 따른 연관성을 분석해 보았을 때에는 OSA 동반 여부와 관계없이 상관관계가 없었다(Table 6). 비교를 위해 해당 환자들을 대상으로 AHI와 수면단계, 수면자세와 어떤 상관 관계를 가지는 분석해 보았을 때에는 OSA가 동반된 환자 군에서만 수면 자세와 상관 관계를 가짐을 알 수 있었다 ($p = 0.028$) (Table 6).

Table 6. Effects of sleep stage and sleep position on CEI and AHI in patients with catathrenia

		CEI or AHI, /h, median (IQR)					
		Sleep stage			Sleep position		
		REM sleep	NREM sleep	<i>p</i>	Supine	Non supine	<i>p</i>
Total (n = 23)	CEI	24.4 (12.3, 39.6)	6.9 (1.8, 12.2)	<0.001	11.8 (5.1, 22.6)	9.2 (3.8, 14.2)	0.256
	AHI	9.2 (2.3, 33.0)	2.0 (0.6, 19.9)	0.010	3.1 (1.2, 24.8)	3.6 (0.8, 18.6)	0.027
OSA (+) (n = 11)	CEI	27.4 (16.3, 42.1)	8.4 (3.6, 15.7)	0.008	12.2 (7.1, 26.9)	11.1 (9.1, 18.3)	0.237
	AHI	33.0 (26.0, 50.6)	19.9 (8.7, 70.3)	0.168	25.6 (14.2, 74.4)	16.5 (5.5, 31.6)	0.028
OSA (-) (n = 12)	CEI	20.6 (4.6, 37.8)	3.2 (1.8, 12.1)	0.023	10.0 (2.8, 21.0)	4.7 (3.1, 9.9)	0.575
	AHI	2.5 (1.8, 3.9)	0.6 (0.6, 1.3)	0.003	1.4 (1.0, 2.2)	0.5 (0.0, 1.7)	0.401

CEI, catathrenia event index; OSA, obstructive sleep apnea; OSA (+), patients with OSA; OSA (-), patients without OSA; IQR, interquartile range; NREM, non-rapid eye movement; REM, rapid eye movement.

고찰

본 연구에서는 아직 병인과 병태생리가 불분명한 수면신음이라는 질환을 더욱 이해하기 위해 수면신음 환자를 OSA 동반 여부를 기준으로 두 군으로 나누어 임상 및 인구학적 특성과 수면다원검사결과를 분석하였다.

수면신음 환자의 일반적 특성 및 수면다원검사 소견

본 연구에서 수면신음 환자의 연령대 분포는 아래와 같이 6~60 세로 분포하며 평균 34.4 세, 표준편차 12.9 세로 확인되었다. 다른 연구에서의 분포를 살펴보면, ICSD 제 2 판에는 연령이 9 ± 10 세로 나타났으나(12), 다른 센터의 보고에 따르면 47.9 ± 15.1 세로 나타나기도 했다(3). 이러한 점을 고려하면, 이 질환 자체는 특정 연령대에 국한되지 않고 소아, 청소년, 성인으로 다양하게 나타난다고 볼 수 있겠다.

한편, OSA (+)군과 OSA (-)군 사이에 각성지수 ($p=0.002$), N1 수면시간 ($p=0.003$), N3 수면시간 ($p=0.003$)에서 유의미한 차이를 보였다. 이러한 점은 수면신음 환자군 내에서도 OSA 가 동반된 경우에는 각성이 보다 빈번하게 나타나 N1 수면시간은 더 길게, N3 수면은 더 짧게 나타난 것으로 생각된다. 이는 나이, BMI, 3% 산소 탈포화 지수, 최저 산소포화도의 유의미한 차이가 있었는데 ($p<0.05$), 이는 OSA 의 특성에 따른 두 군의 차이로 생각된다.

수면신음 환자에서 관찰된 수면신음사건의 특성

OSA (+)군과 OSA (-)군 사이의 환자 당 수면신음사건의 평균 횟수와 지속시간에서는 통계적으로 유의미한 차이는 없었으나, 수면신음기간의 평균 횟수와 지속시간은 유의미한 차이가 있었다. 수면신음기간의 횟수는 OSA (+) 군에서 더 많고($p=0.032$), 수면신음기간의 지속시간은 OSA(+)군에서 더 짧은 것으로 확인되었다 ($p=0.013$). 이 점에서 나아가 각 군의 수면신음기간을 대상으로 1 개의 수면신음기간에 평균적으로 몇 개의 수면신음사건이 포함되어 있는지 추가 분석을 해 보았을 때, 한 개의 수면신음기간 당 수면신음사건의 횟수는 OSA (+)군에서는 평균 1.62 개, OSA (-)군에서 평균 3.34 개로 확인되었다 ($p<0.001$). 실제 수면다원검사에서 나타나는 수면신음의 패턴도 OSA

(+)군에서는 수면무호흡에 1-2 개의 수면신음사건이 따라오는 패턴이 주로 관찰된 반면, OSA (-)군에서는 2-3 개 이상의 수면신음사건이 무리지어 나타나는 패턴으로 이질적인 양상을 보였다. 이러한 패턴의 차이는 수면신음이라는 질환이 단순히 한 가지 성질을 띤 질병이 아니라 내부에 이질적인 질환군이 포함되어 있을 가능성을 시사한다. 실제로 최근 연구에 따르면, 수면신음이라는 질환이 단일 질환이 아니라 호흡 관련 수면 질환과 사건 수면의 이질적 패턴을 가지는 질환의 복합체라는 의견도 있다(15).

수면신음지수와 각 환자의 인구학적 인자 및 수면인자 사이의 관계

전체 수면신음 환자를 대상으로 수면신음지수와 인구통계학적 인자 및 수면다원검사에서 측정된 수면 지표의 상관 관계를 분석해 보았을 때, N1 수면시간과는 양의 상관관계 (Spearman's $\rho=0.417$, $p=0.048$), 수면 잠복기와는 음의 상관관계 (Spearman's $\rho=-0.533$, $p=0.009$)를 보였다. N1 수면은 보통 수면 중 각성의 빈도가 늘어나게 되면 비율이 늘어나는 경향을 보이고(26), 수면 잠복기는 짧게 나타날수록 주간 졸음이 증가한 것을 반영한다(27). 이러한 경향성을 고려해보면, 수면신음사건이 증가할수록 환자는 수면 중 각성이 증가하고, 이는 주간 졸음의 증가로 이어질 수 있음을 시사한다고 볼 수 있겠다.

수면단계 및 자세에 따른 수면신음지수와 의 상관관계 분석을 했을 때에는 렘수면에서 더 유의미한 상관관계를 보이고 ($p<0.05$), 수면자세와는 통계적으로 유의미한 상관관계를 보이지 않았는데, 동일한 환자들을 대상으로 AHI와 수면단계, 수면자세와의 유의성을 분석했을 때 OSA가 동반된 군에서만 수면 자세와 상관관계를 보인 것과는 대조적이었다 ($p=0.028$). OSA 동반 여부와 관계없이 렘수면과 수면신음지수의 상관관계가 있는 것으로 나타난 것은 수면신음이라는 질환의 전체적인 특징으로 생각된다. 이는 수면신음이 주로 비렘수면 보다 렘수면시에 두드러지게 높은 빈도로 나타난다고 보고된 이전의 연구와 상통하는 부분이다(6, 28).

기존 문헌들이 주로 단일 증례 보고나 증례 모음 형태로 이루어졌다는 점을 고려했을 때에는 본 연구는 이전보다는 비교적 많은 환자를 대상으로 시행한 연구라는 점에서 의미가 있다. 하지만 본 연구는 대상 질환인 수면신음의 낮은 유병률로 다른 수면 질환에 대한 연구와 비교했을 때 대상 환자의

수가 적다는 제한점이 있다. 또한, 단일기관 후향적 연구로 선택 바이어스의 영향이 있을 수 있다. 이런 제약을 극복하기 위해서 더 많은 환자 수 분석이 도움이 될 것으로 판단되며, 다기관연구나 메타분석을 시행할 경우 더욱 통계적으로 유의미한 분석을 할 수 있을 것으로 생각된다.

결론

본 연구에서 수면신음은 OSA 동반 여부와 관계없이 렘수면에서 더 많이 나타나는 공통적인 특성을 보이기도 하지만, OSA 동반 여부에 따라 수면 무호흡에 1-2 개의 수면신음사건이 따라오는 패턴과 2-3 개 이상의 수면신음사건이 무리지어 나타나는 패턴의 이질적인 양상이 존재함을 확인할 수 있었다. 이러한 점은 수면신음이 단일한 병태생리를 가진 하나의 질환이라기 보다는, 수면신음 전체 질환 집단내 이질적 패턴의 존재 가능성을 시사한다.

참고문헌

1. International classification of sleep disorders. 3rd ed. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine; 2014.
2. De Roeck J. Sleep-related expiratory groaning : A case report. *Sleep Res.* 1983;12:237.
3. 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(2):367-73.
4. Guilleminault C, Hagen CC, Khaja AM. Catathrenia is not expiratory snoring. *Sleep.* 2008;31(6):774-5.
5. Neutel D, Peralta R, Bentes C. Mystery case: catathrenia: a rare but treatable parasomnia. *Neurology.* 2014;82(12):e98-9.
6. Pevernagie, Boon, Mariman, Verhaeghen, Pauwels. Vocalization during episodes of prolonged expiration: a parasomnia related to REM sleep. *Sleep medicine.* 2001;2 1:19-30.
7. Ramar K, Gay P. Catathrenia: getting the 'cat' out of the bag. *Sleep Breath.* 2008;12(4):291-4.
8. Steinig J, Lanz M, Krügel R, Happe S. Breath holding - A rapid eye movement (REM) sleep parasomnia (catathrenia or expiratory groaning). *Sleep Med.* 2008;9(4):455-6.
9. 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(11):1236-43.
10. Vetrugno R, Provini F, Plazzi G, Vignatelli L, Lugaresi E, Montagna P. Catathrenia (nocturnal groaning): a new type of parasomnia. *Neurology.* 2001;56(5):681-3.
11. Koo DL, Hong SB, Joo EY. Acoustic characteristic of catathrenia and snoring: different subtypes of catathrenia. *Sleep Med.* 2012;13(7):961-4.
12. International classification of sleep disorders: diagnostic and coding manual. 2nd ed. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine; 2005.
13. Manconi M, Zucconi M, Carrot B, Ferri R, Oldani A, Ferini-Strambi L. Association between bruxism and nocturnal groaning. *Mov Disord.* 2008;23(5):737-9.
14. International classification of sleep disorders. 1st ed. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine; 1990.
15. Iriarte J, Campo A, Alegre M, Fernández S, Urrestarazu E. Catathrenia: respiratory disorder or parasomnia? *Sleep Med.* 2015;16(7):827-30.
16. Prihodova I, Sonka K, Kemlink D, Volna J, Nevsimalova S. Arousals in nocturnal groaning. *Sleep Med.* 2009;10(9):1051-5.
17. Songu M, Yilmaz H, Yuceturk AV, Gunhan K, Ince A, Bayturan O. Effect of CPAP therapy on catathrenia and OSA: a case report and review of the literature. *Sleep Breath.* 2008;12(4):401-5.
18. 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(4):609-10.

19. Becker HF, Piper AJ, Flynn WE, McNamara SG, Grunstein RR, Peter JH, et al. Breathing during sleep in patients with nocturnal desaturation. *Am J Respir Crit Care Med.* 1999;159(1):112-8.
20. Fouke JM, Strohl KP. Effect of position and lung volume on upper airway geometry. *J Appl Physiol* (1985). 1987;63(1):375-80.
21. Olson L. A biomechanical view of the upper airway. The respiratory function of the upper airway. 1988:359-90.
22. Cho YW, Lee JH, Son HK, Lee SH, Shin C, Johns MW. The reliability and validity of the Korean version of the Epworth sleepiness scale. *Sleep Breath.* 2011;15(3):377-84.
23. Johns MW. A new method for measuring daytime sleepiness: the Epworth sleepiness scale. *Sleep.* 1991;14(6):540-5.
24. Drakatos P, Higgins S, Duncan I, Stevens S, Dastagir S, Birdseye A, et al. Catathrenia, a REM predominant disorder of arousal? *Sleep Med.* 2017;32:222-6.
25. Berry RB BR, Gamaldo CE, Harding SM, Marcus C, Vaughn B. The AASM manual for the scoring of sleep and associated events. Rules, Terminology and Technical Specifications. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine; 2012.
26. Shrivastava D, Jung S, Saadat M, Sirohi R, Crewson K. How to interpret the results of a sleep study. *Journal of Community Hospital Internal Medicine Perspectives.* 2014;4(5):24983.
27. Van Dongen HP, Maislin G, Mullington JM, Dinges DF. The cumulative cost of additional wakefulness: dose-response effects on neurobehavioral functions and sleep physiology from chronic sleep restriction and total sleep deprivation. *Sleep.* 2003;26(2):117-26.
28. Oldani A, Manconi M, Zucconi M, Castronovo V, Ferini-Strambi L. 'Nocturnal groaning': just a sound or parasomnia? *J Sleep Res.* 2005;14(3):305-10.

영문 요약

Difference in Clinical and Polysomnographic Characteristics depending on the presence of Obstructive Sleep Apnea in Catathrenia Patients

Kwan Young Park

Department of Neurology, Asan Medical Center, University of Ulsan, Seoul, Republic of Korea

Catathrenia is a disease characterized by a monotonous groaning sound related to expiration that continuously occurs during sleep. It is a very rare disease, with less than 100 reports in the literature so far. Due to lack of understand of the characteristics and pathophysiology of catathrenia, the etiology and classification as a sleep disorder is still controversial. Response to continuous positive airway pressure treatment varies from patient to patient. From this point of view, the aim of this study is to analyze clinical and polysomnographic characteristics of catathrenia patients depending on the presence of obstructive sleep apnea (OSA).

This study is a retrospective study targeting patients who diagnosed as catathrenia through polysomnography at Asan Medical Center, Seoul, Republic of Korea. Patients were divided into two groups: OSA (+) group and OSA (-) group. Demographic, clinical, and polysomnographic factors were analyzed in overall catathrenia patients and subgroups. For statistical analysis, Student's t-test, Mann-Whitney test, Wilcoxon signed rank test, and Spearman's rank-order correlation were used.

Comparing two subgroups divided by presence of OSA, total arousal index was higher, the N1 sleep time was longer, whereas the N3 sleep time was shorter in OSA (+) with statistical significance. The difference seems to be caused by more frequent arousal when OSA is present. There was no significant difference in the number and duration of catathrenia events per patient between the OSA (+) group and the OSA (-) group, however the number of catathrenia periods was higher in the OSA (+) group, and the duration was shorter in the OSA (+) group. Actual polysomnography also showed this heterogenic patterns: sleep apnea followed by 1-2 catathrenia

events was mainly observed in the OSA (+) group, whereas 2-3 or more catathrenia events appeared in clusters in the OSA (-) group, which heterogeneous patterns were observed.

Analysis of the correlation between catathrenia event index and demographic factors, sleep index measured in polysomnography for all catathrenia patients showed that N1 sleep time showed a positive correlation and sleep latency showed a negative correlation with catathrenia event index. When Wilcoxon signed rank test between REM sleep status, sleep posture and catathrenia event index was performed, REM sleep status showed significant correlation with catathrenia event index regardless of the presence of OSA, in contrast to sleep posture which did not show correlation with catathrenia event index.

The correlation between REM sleep and catathrenia event index regardless of the presence of OSA is an overall characteristic of catathrenia. However, heterogeneous patterns of catathrenia were found according to the presence of OSA: 1-2 catathrenia events following sleep apnea event and a continuous cluster of 2-3 or more catathrenia events. These findings suggest that catathrenia is not a disease with a single pathophysiology, but a group of diseases with a heterogeneous nature.

Key words: Catathrenia, REM sleep, Sleep position, Obstructive sleep apnea