

“Catatrenia”: Un trastorno del Sueño poco conocido. Descripción de tres casos clínicos pediátricos.

Catathrenia: unknown Sleep disorder. Report 3 cases in pediatric patients.

Tomás Mesa Latorre (*). **Claudia Riffo Allende (*)**.

Resumen. Catatrenia (gemido nocturno) es una condición rara caracterizada por sonidos irregulares que ocurren durante el sueño. Los comportamientos ocurren intermitentemente durante cualquiera de las dos etapas de sueño, REM o NREM y se caracterizan por gemidos prolongados, a menudo muy fuertes, socialmente perturbadores, durante la espiración. Es poco conocido y espera más definición y estudios terapéuticos. Hay pocos reportes y en su mayoría de pacientes adultos. Se presentan 3 casos en pacientes pediátricos. **Palabras clave:** Catatrenia, trastorno respiratorio del sueño. Parasomnia. Gemido Nocturno. Quejido nocturno.

Abstract. Catathrenia (nocturnal groaning) is a rare condition characterized by irregular sounds that occur during sleep. The behaviors occur intermittently during either REM or NREM sleep and are characterized by prolonged, often very loud, socially disruptive groaning sounds during expiration. It is poorly understood and awaits further definition and therapeutic studies. There are few reports mostly adult patients are presented below 3 cases in pediatric patients. **Keywords:** Catathrenia, Sleep disordered breathing, Parasomnia. Nocturnal groaning. Nocturnal crying.

INTRODUCCIÓN

La Catatrenia o quejido nocturno (*Nocturnal groaning*) es un trastorno del sueño raro y poco conocido, se caracteriza por gemidos ocasionados durante la espiración. Fue descrita por primera vez en 1983 por De Roeck, y van Hoof. (1) En el 2001 Pevernagie la relacionó con la respiración debido a la presencia de espiración prolongada. Vetrugno en el 2004 propuso el nom-

bre de catatrenia y su inclusión dentro de las parasomnias (2-3). Catatrenia proviene del Griego *Kata* suave y *Trenia* es lamento.

Existen escasos reportes publicados a la fecha. Su patogénesis y clasificación han sido fuente de debate siendo clasificada ICSD-2 como una parasomnia y luego reclasificada en ICSD-3 (2014) como un trastorno respiratorio del Sueño (4-5), de predominio del sueño

(*) Unidad de Neurología Pediátrica. División de Pediatría. Centro de Medicina del Sueño pediátrico. Universidad Católica de Chile, Santiago de Chile.

Correspondencia: Dr Tomás Mesa Latorre. Apoquindo 3990 of. 404. Las Condes

Email: Tomásmesalatorre@gmail.com

REM. Su relevancia clínica sigue sin ser comprendidas. Las series de casos son pequeñas para poder caracterizar mejor esta enfermedad. Sin embargo, no se describen síntomas diurnos significativos (1). Se ha descrito que luego de una inhalación prolongada le sigue una espiración prolongada, que se presenta como bradipnea. Se asemeja a una apnea central en los registros polisomnográficos pero sin desaturación de oxígeno, en la que se producen sonidos que duran entre 2 y 49 segundos, con una media de 12+-4,6 (4-7). Los sonidos varían entre cada persona, pero tienden a ser el mismo en cada paciente. Los ruidos son en general en tonos altos y de gran volumen descritos en una frecuencia armónica fundamental (7). Todas las señales de gemido son rítmicas o semirrítmicas, clasificadas como tipo I y II, se describe mayor en hombre con una relación de 3:1 y su rango etéreo es entre adolescentes hasta mediana edad. La naturaleza de este sonido es ser armónico lo que lo diferencia del ronquido que son sonidos caóticos (8).

La prevalencia en un centro de trastornos del sueño es alrededor de 0,5%. (2) La mayor parte de los reportes son en pacientes adultos, recientemente aparece el primer reporte en niños (6). Según el ICSD-2. El promedio de edad de inicio es 9+-10 años (rango 5-36 años). (5).

Los episodios suelen agruparse, se describen predominantemente durante el sueño REM (8), pero varios autores lo han descrito en NREM. No hay alteraciones al examen físico neurológico (7-8). Se ha descrito asociación con laringoespasmos, pero en evaluaciones otorrinolaringológicas no han encontrado alteraciones. La evolución de este trastorno ha sido relativamente

reciente, existen menos de 100 casos hasta la fecha, faltando seguimiento y evolución de estos pacientes. (2). Recientemente se ha descrito terapia con presión positiva continua en vías respiratorias con CPAP resultando satisfactorios en la calidad de vida, y una marcada reducción en la intensidad de los sonidos. En un porcentaje menor se asocia a ronquidos que predominan en etapa NREM siendo estos cortos, de alrededor de 1,5 segundos, con un sonido de onda caótica. (8)

DESCRIPCIÓN DE CASOS CLÍNICOS

Paciente 1:

Paciente masculino de 14 años, acude junto a sus padres a consulta de trastorno del sueño por episodios de sonido durante el sueño nocturno desde hace algunos meses. Lo refieren como un “quejido ahogado”, se ha hecho esporádico y hasta 2 veces por semana, mínimo una al mes. La madre preocupada y atemorizada al escuchar por largos periodos un sonido entre lamento y ahogo. Además, la familia se despierta por este quejido.

El paciente no tiene conciencia de esto, solo lo que le han contado sus padres. Sin antecedentes perinatales relevantes; Recién nacido de término, adecuado para la edad gestacional, con desarrollo psicomotor normal. Examen físico sin alteraciones y examen neurológico normal. La madre refiere que después del terremoto 2011, está más ansioso y con dificultades para dormir, algo nervioso, ha bajado sus notas, y últimamente se ha quedado dormido en clases. Es deportista. No hay antecedentes de enfermedades neurológicas relevantes. Su promedio académico actual es 5.8.

Se realizó un polisomnograma basal nocturno (PSG): que mostró una arquitectura de sueño normal, solo destacaba una disminución en el sueño REM 17%, presencia de ronquido hasta un 21% e índice normal de apneas-hipoapneas. (IAH).

Paciente lleva un diario de sueño; los eventos persisten un poco más espaciados, luego de mejoría en la higiene del sueño, como la suspensión de pantallas 2 horas antes de la hora de ir a dormir. Se complementó con una interconsulta a otorrinolaringología para evaluación, que resultó sin alteraciones.

Paciente 2:

Paciente masculino de 10 años, sano, sin antecedentes relevantes, con desarrollo psicomotor normal y sin historia familiar de patología del sueño. A los 9 años 6 meses comienza con eventos durante el sueño, consistentes en sonidos al expirar de tipo gemido, prolongado de hasta 50 segundos de duración. Los episodios se conforman en racimos o “clusters” de prolongada duración, apareciendo a diario o por lo menos 3 veces por semana. Familia preocupada.

Examen neurológico normal, IMC pc 78, Mallampati II.

El niño no tiene quejas de somnolencia diurna en el día. Estaba libre de medicamentos. Se objetiva por videos: un sonido de tono alto y prolongado y en el PSG: eficiencia 80%, latencia de sueño normal, se observa arquitectura del sueño normal, sin desaturaciones e IAH normal. Tampoco hay índice de movimientos periódicos de extremidades anormal.

Paciente 3:

Paciente masculino de 12 años, cuya

madre consulta en policlínico del Centro Médico de Trastornos del Sueño por quejarse mientras duerme en la noche desde aproximadamente 6 meses y todas las noches. Se caracteriza como un “quejido” o “lamento”, de alto volumen, siendo escuchado desde las otras habitaciones de la casa, que viene y se va. Mantenido entre 5 y 15 segundos. Periodos variables sin emitir sonido entre medio. Durante el evento, mantiene boca cerrada y expresión facial sin movimientos. Puede incluso, a veces, girar su cuerpo y mover brazos en forma pausada. No se despierta. (se observa video aportado por su familia). Los eventos pueden durar hasta aproximadamente 2 horas, en medio de la noche. Al día siguiente no recuerda lo sucedido. No le afecta en su vida diaria. No hay una razón desencadenante clara. Antecedentes perinatales normales. Desarrollo psicomotor normal. Hace deportes y sociabiliza bien con sus pares. Buen rendimiento escolar. Examen físico y neurológico normal. Se solicitó Polisomnograma, pero por motivos económicos no se realizó.

COMENTARIO

Se ilustran tres casos de catatrenia en jóvenes, con el objetivo de comunicar las características clínicas y poder tener la sospecha diagnóstica de esta patología. En la Tabla 1, se aprecia un resumen de las diferentes características de los 3 pacientes. Los reportes en la edad pediátrica son escasos, motivo por lo que no se plantea el diagnóstico habitualmente en este grupo.

En los últimos años se han notificados más pacientes, como lo hace en un meta-análisis Alonso y colaboradores, reportando 191 pacientes en 2017 (9).

Tabla I Caracterización de los pacientes con Cataatrenia

| Caso | Edad | Duración "quejido" (meses) | Descripción | Frecuencia | Duración | Amnesia | Alteración familiar | Examen Neurologico | Redimiento escolar | PSG |
|------|------|----------------------------------|--------------------|----------------------|------------|---------|------------------------|-----------------------|-----------------------|-----------------------------------|
| 1 | 14 | 6 | Quejido Ahogo | 1 mes a 2/semana | (¿) | (+) | (+) | Normal | Normal | REM disminuido Ronquido 21% |
| 2 | 10 | 6 | Gemido | 3/semana a diario | (50 seg) | (+) | (+) | Normal | Normal | Normal |
| 3 | 12 | 6 | Quejido Lamento | Diario | (5-15 seg) | (+) | (+) | Normal | Normal | No realizado |

Es una situación clínica que atemoriza al entorno, derivando en interpretaciones variadas en los familiares, incluyendo emocionales, amorosas o sexuales. No se ha descrito daño físico o autoagresión como otras parasomnias, a parte del ruido que compromete el sueño de los que duermen en el entorno, siendo esta situación que se dio en nuestros pacientes. (9)(10).

La relevancia clínica sigue sin ser explorada, notando que en los pacientes no incide en alteraciones cognitivas, emocionales, respiratorias o pondo-estaturales, aunque se han descrito fatiga y sueño no reparador, síntomas que no encontramos en nuestra serie. Notable fue el dato que casi una quinta parte de la serie de Alonso y col., eran activos nadadores (9).

Si hay alteración de la calidad de vida en los familiares que pernoctan con los pacientes, alterando el sueño de ellos y el área emocional, tal como reportamos en nuestros pacientes. Puede ser confundida con ronquidos o somnolencia, pero una buena anamnesis es suficiente para aclarar el diagnóstico, especialmente con la ayuda de videos, como fue en nuestro caso 3.

La realización de un polisomnograma (PSG), para evaluar diagnósticos diferenciales debe ser considerada, ya que nos permite una mayor precisión, como los micro-despertares previo al evento y descartar comorbilidades, como apneas, especialmente centrales, movimientos rítmicos del sueño, etc... (9)(10).

En el tercer paciente, no se pudo realizar un estudio polisomnográfico de sueño, pero fue suficiente la caracterización clínica de su cuadro, mediante un video casero, aportado por la familia. Pensamos, que al tener un buen video, no sería obligatorio para el diagnóstico el PSG, aunque conveniente realizarlo.

En el manejo, se han descritos diferentes terapias, incluyendo, yoga, meditación, kinesoterapia y uso de CPAP. (9) (10).

En nuestros casos no se realizó un tratamiento específico, solo educación, para disminuir la ansiedad familiar y explicar a los pacientes a propósito de la queja de los familiares.

El seguimiento en el tiempo nos permitirá caracterizar mejor la patología.

La sospecha diagnóstica es importante para poder precisar los eventos y aliviar al entorno.

CONCLUSIÓN

Presentamos una serie de tres pacientes con Catatrenia, adolescentes, con el característico lamento nocturno, sin grandes repercusiones en su estado de salud, pero si, con compromiso de la calidad de vida de su entorno familiar, por alteración del sueño y preocupaciones por no saber el origen de su morbilidad. La sospecha diagnóstica por el equipo de salud es un desafío. El diagnóstico en clínico, y el educar y su seguimiento son fundamentales, motivo por el que se presenta esta serie de casos clínicos.

Agradecimientos:

Agradecemos a todos los profesionales que han ayudado a identificar a estos pacientes, Departamento de pediatría, Centro del Sueño Universidad Católica.

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no hay conflicto de interés

Presentado al Comité de Ética de la Universidad Católica.

Los pacientes tienen consentimiento informado.

Fondos

No hubo apoyo proporcionado para financiamiento de este caso.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. De Roek J, Van Hoof E, Cluydts R. Sleep related expiratory groaning. A case report. *Sleep Res* 1983;12:237.
2. Panagis Drakatos. Catathrenia, a REM predominant disorder of arousal? *Sleep Medicine* (2016)
3. Vetrugno R, Lugaresi E, Ferini-Strambi L, et al. Catathrenia (nocturnal groaning): what is it? *Sleep* 2008;31(3):308–9.
4. Iriarte J, Campo A, Alegre M, et al. Catathrenia: respiratory disorder or parasomnia? *Sleep Med* 2015;16(7):827–30.
5. American Academy of Sleep Medicine (AASM). International classification of sleep disorders. 3rd ed. Darien: American Academy of Sleep Medicine; 2014
6. Claire Bar. Catathrenia in a four-year-old boy: a first case report. *Sleep Medicine* 20 (2016) 131–133
7. Dae Lim Koo, Acoustic characteristic of catathrenia and snoring: Different subtypes of catathrenia, *Sleep Medicine* 13 (2012) 961–964
8. Polysomnographic characteristics and acoustic analysis of catathrenia (nocturnal groaning) Min Yu1, Yongfei Wen, Liyue Xu, Fang Han and Xuemei Gao Published 30 December 2020 • Institute of Physics and Engineering in Medicine Min Yu et al 2020 *Physiol. Meas*
9. 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 Apr 15;13(4):613-622. Doi: 10.5664/jcsm.6556.
10. Songu M, Yilmaz H, Yuceturk AV, Gunhan K, Ince A, Bayturan O. Songu M, et al. Effect of CPAP therapy on catathrenia and OSA: a case report and review of the literature. *Sleep Breath*. 2008 Nov;12(4):401-5. doi: 10.1007/s11325-008-0194-6. Epub 2008 May 31.