

# Zaburzenia ruchowe podczas snu u dzieci – opis przypadku

## Movement disorders during sleep in children – a case report

Monika Cieślik, Małgorzata Drzewiecka, Agnieszka Piasna, Marcin Żarowski, Barbara Steinborn

Pracownia Polisomnografii i Badań Snu Dzieci i Młodzieży

Katedra i Klinika Neurologii Wieku Rozwojowego Uniwersytet Medyczny im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu

### STRESZCZENIE

Opublikowana w roku 2005 druga wersja Międzynarodowej Klasyfikacji Zaburzeń Snu wyodrębniła nową kategorię: zaburzenia ruchowe związane ze snem, do której należą m.in. zaburzenia z rytmicznymi ruchami w czasie snu (RMD). RMD obejmują powtarzalne, stereotypowe i rytmiczne ruchy głowy lub całego ciała, występujące podczas zasypiania i we wszystkich stadiach snu. Ruchy te najczęściej pojawiają się w stadium 1 snu NREM, a najrzadziej we śnie REM. Epizody częściej obserwuje się u niemowląt i małych dzieci, a ich częstotliwość występowania z wiekiem maleje. Klasyfikacja wyodrębnia 3 podtypy tego zaburzenia: kołysanie ciała (*body rocking*), uderzanie głową (*head banging*), obracanie głową (*head rolling*). Pacjenci często prezentują kombinacje wymienionych podtypów. Przed postawieniem rozpoznania RMD należy przeprowadzić różnicowanie z innymi zaburzeniami, podczas których występują rytmiczne ruchy. Celem pracy jest prezentacja przypadku klinicznego i diagnostyki różnicowej 5-letniej dziewczynki, która podczas zasypiania reprezentowała rytmiczne ruchy głową o charakterze uderzania w poduszkę.

**Słowa kluczowe:** badania polisomnograficzne z videometrią, klasyfikacja ICSD-2, zaburzenia ruchowe związane ze snem, zaburzenia z rytmicznymi ruchami w czasie snu

### ABSTRACT

In 2005 the second version of the International Classification of Sleep Disorders has identified a new category: sleep related movement disorders, which include, among others rhythmic movement disorder during sleep (RMD). RMD consists of repetitive, stereotyped and rhythmic movements of large muscle groups that occur predominantly during drowsiness and sleep. These movements usually occur in stage 1 NREM sleep and rarely in REM sleep. Episodes are often seen in infants and young children, and their frequency decreases with age. The classification distinguishes three subtypes of the disorder: rocking body (*body rocking*), hitting the head (*head banging*), turning the head (*head rolling*). Body rocking, head banging and head rolling are the most prevalent types of RMD. Patients may also present a combination of the above movements. Aim of this study is to present the clinical and differential diagnosis of five year old girl, who represented during the onset of sleep rhythmic movements of striking head on the pillow.

**Key words:** classification ICSD-2, polysomnography study with video, rhythmic movement disorder, sleep related movement disorders

Zaburzenia snu występują często u dzieci i młodzieży. Ich etiologia jest złożona i zależy od wielu różnych czynników. Szczególną grupą obserwowaną w populacji dziecięcej są zaburzenia ruchowe w czasie snu. Ostatnia wersja Międzynarodowej Klasyfikacji Zaburzeń Snu (ICSD-2), opublikowana w roku 2005 przedstawia współczesne kryteria diagnostyczne i klasyfikację zaburzeń snu u dzieci i dorosłych [1]. Nową kategorią umieszczoną w tej edycji klasyfikacji są zaburzenia ruchowe związane ze snem. Do tej kategorii zaliczono [1] • zespół niespokojnych nóg • zespół okresowych ruchów kończyn w czasie snu • nocne kurcze mięśni kończyn • bruksizm • zaburzenia z rytmicznymi ruchami w czasie snu • zaburzenia ruchowe związane ze snem (nieokreślone, związane z chorobami somatycznymi, stosowaniem leków lub innych substancji).

Zaburzenia ruchowe związane ze snem należy odróżnić od zaburzeń ruchowych w ciągu dnia, zaburzeń snu związanych z padaczką i parasomniami. Podstawowym

narzędziem do ich różnicowania jest prawidłowo zebrany wywiad, domowa rejestracja wideo epizodów, a także badanie polisomnograficzne z rejestracją wideo [1–4]. Zgodnie z definicją zaburzenia z rytmicznymi ruchami w czasie snu (RMD) obejmują powtarzalne, stereotypowe i rytmiczne ruchy głowy lub całego ciała o częstotliwości 0,5–2 Hz [1,5–7]. Epizody ruchowe trwają nie dłużej niż 15 minut. Klasyfikacja wyodrębnia 3 podtypy tego zaburzenia [7–10]: najczęściej występuje kołysanie ciałem (*body rocking*), następnie uderzanie głową (*head banging*) oraz obracanie głową (*head rolling*). Pacjenci często prezentują kombinacje wyżej wymienionych podtypów. RMD po raz pierwszy zostały opisane w roku 1905 niezależnie przez dwóch autorów: Zapperta jako *jactatio capitis nocturna* i przez Crucheta jako *rhythmic du sommeil* [7].

Aby postawić prawidłową diagnozę, należy epizody RMD różnicować z innymi zaburzeniami, podczas których mogą występować rytmiczne ruchy, jak: bruksizm, ssanie

kciuka, rytmiczne ssanie smoczka, stereotypowe zaburzenia ruchowe, padaczka lub ruchy mimowolne o innej etiologii [2,6].

Przyczyna występowania u dzieci rytmicznych ruchów ciała podczas zasypiania może być związana z wyuczoną autostymulacją, która sprawia im przyjemność, powoduje zmniejszenie odczuwanego wewnętrznego napięcia i ułatwia zasypianie, a z czasem staje się to warunkiem koniecznym do zaśnięcia [2]. Inne hipotezy próbują wiązać występowanie RMD z potrzebą stymulacji związaną z dojrzewaniem narządu przedsionkowego [2].

Najczęściej epizody RMD występują w senności lub bezpośrednio po zaśnięciu (w stadium 1 snu NREM), a najrzadziej we śnie REM, ale mogą wystąpić w każdym stadium snu jak i nawet w czuwaniu podczas spokojnej aktywności, np. jak jazda samochodem [2,5–7].

Rozpoznanie RMD u dzieci głównie opiera się na wywiadzie. Powinny w nim znaleźć się odpowiedzi na pytania dotyczące nawyków związanych ze snem i zasypianiem. Dodatkowym narzędziem, które ułatwia lekarzowi postawienie właściwej diagnozy, jest domowa rejestracja wideo i nocna polisomnografia z wideometrią [2–4,11,12].

#### OPIS PRZYPADKU

Dziewczynka, lat 5, została przyjęta do Kliniki Neurologii Wieku Rozwojowego celem diagnostyki zaburzeń snu. W relacji rodziców od kilku lat, codziennie, podczas zasypiania dziewczynka wykonuje rytmiczne ruchy głową. Objawy te pojawiają w godzinach wieczornych, a także podczas zasypiania w czasie drzemek popołudniowych. Epizody trwają średnio kilka minut, po czym dziecko śpi spokojnie.

Wywiad okołoporodowy oraz rodzinny w kierunku padaczki był nieobciążony. Wywiad rodzinny w kierunku zaburzeń snu był również ujemny. Rozwój psychoruchowy dziecka przebiegał prawidłowo. Z powodu opisywanych zaburzeń ruchowych wysunięto podejrzenie padaczki. Dziewczynka była leczona: karbamazepiną, benzodiazepinami oraz melatoniną w dawkach należnych bez oczekiwanego efektu terapeutycznego.

Przy przyjęciu do Kliniki w badaniu pediatrycznym i neurologicznym nie stwierdzono istotnych odchyłeń od stanu prawidłowego. U dziecka wykonano całonocne badanie polisomnograficzne z rejestracją wideo. W trakcie badania polisomnograficznego monitorowano czynność EEG z odprowadzeń C3-A2, C4-A1, O1-A2, O2-A1, Elektrookulogram, EMG z mięśnia podbródkowego, przepływ powietrza przez usta i nos czujnikiem termopary, chrapanie – czujnikiem piezoelektrycznym, pulsoksymetrię, ruchy klatki piersiowej i brzucha, EKG – z odprowadzeń przedsercowych, ruchy kończyn dolnych. Badanie było oceniane z użyciem standardowych kryteriów oceny stadiów snu [13]. W zapisie badania polisomnograficznego obserwowano prawidłową, odpowiednią dla wieku, makrostrukturę snu. W czasie badania nie obserwowano podczas niego zaburzeń oddychania. W okresie zasypiania i stadium 1 snu NREM zarejestrowano sporadycznie występujące, rytmiczne ruchy głową o charakterze uderzania w poduszkę. Nie obserwowano związku opisywa-

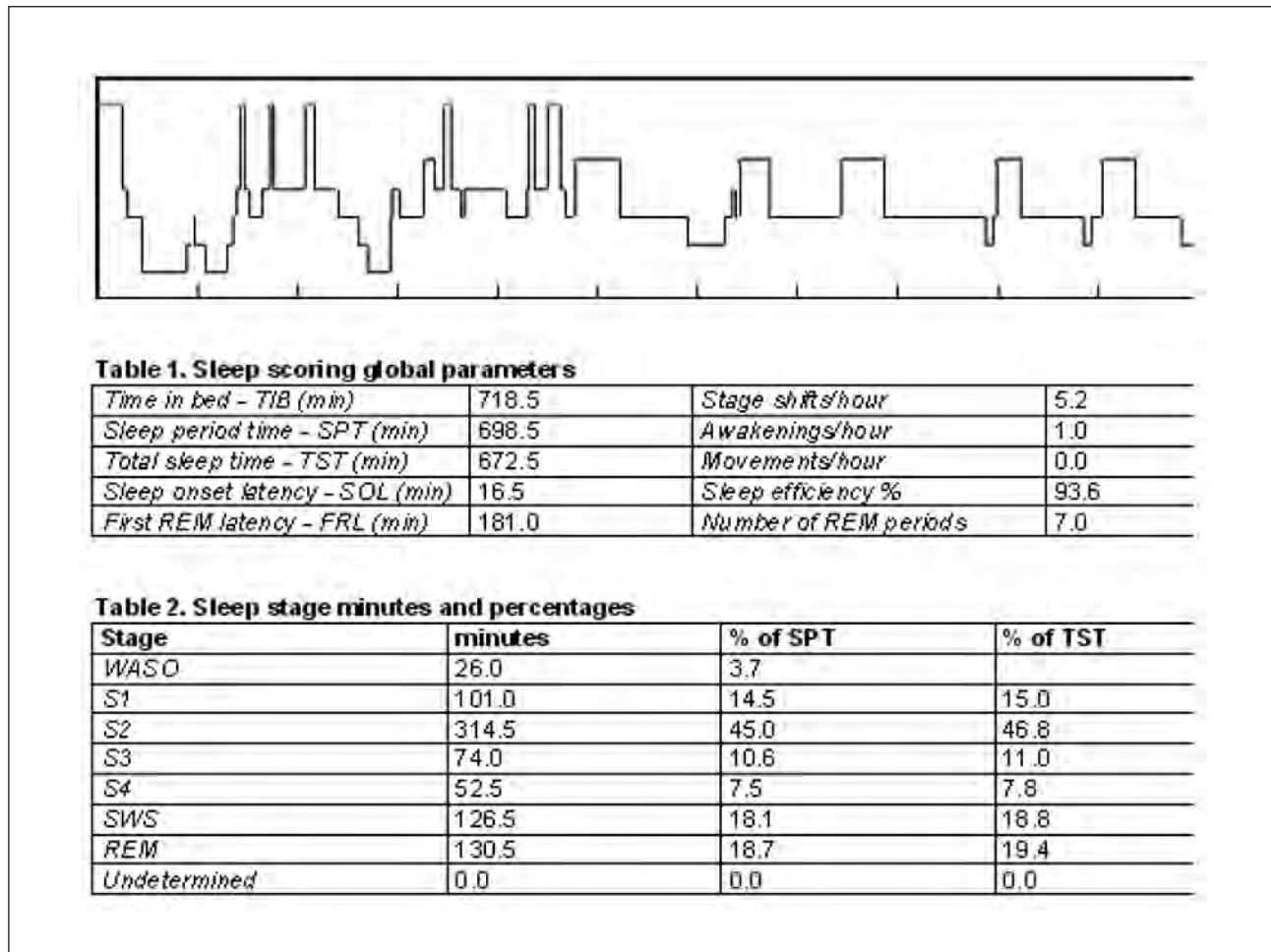
nej rytmicznej czynności ruchowej z niestabilnością snu NREM. W czasie trwania tych epizodów nie rejestrowano w odprowadzeniach EEG czynności napadowej. Obraz polisomnograficzny został opisany jako sugerujący występowanie utrwalonych, nawykowych jaktacji głowy (ryc.1, 2).

W wykonanym podczas pobytu w Klinice badaniu psychologicznym potwierdzono, że występujące zaburzenia są utrwalonym nawykiem, który może być związany z realizacją dziecięcych potrzeb akceptacji i miłości. Zalecono wgląd w potrzeby emocjonalne dziewczynki, głównie przez mamę pacjentki, tj. spędzanie z nią wolnego czasu, poświęcanie uwagi i zaangażowania. Poziom rozwoju funkcji intelektualnych, rozwoju funkcji grafomotorycznych, koordynacja wzrokowo-ruchowa były odpowiednie dla wieku. Bardzo dobry też był rozwój funkcji społecznych. Obraz kliniczny i przeprowadzone badania dodatkowe pozwoliły na postawienie rozpoznania zaburzenia z rytmicznymi ruchami w czasie snu.

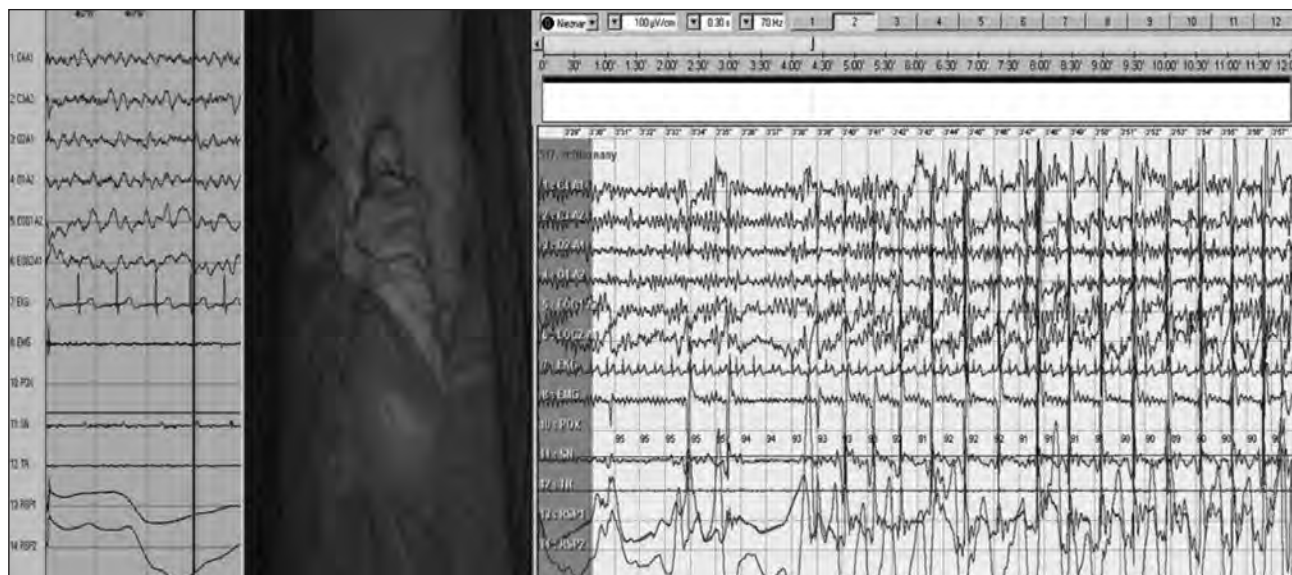
#### DYSKUSJA

Zaburzenia snu dotyczą około 25% dzieci [3]. Często stanowią one poważny problem dla rodziców i opiekunów, szczególnie gdy pojawiają się nieprawidłowości ciągłości snu nocnego. Wywiad zebrany odpowiednio przez lekarza bardzo często pozwala na postawienie właściwej diagnozy [3]. Diagnostyka różnicowa napadowych zaburzeń snu jest często trudna, zwłaszcza gdy pacjenci przedstawiają kombinację różnych podtypów zaburzeń związanych z rytmicznymi ruchami podczas snu.

Częstość występowania RMD jest największa u małych dzieci. Khana i wsp. zauważyli, że częstotliwość występowania RMD wynosi 66% u 9-miesięcznych dzieci [7]. Częstość RMD maleje wraz z wiekiem do 8% w 4 roku życia, a epizody występują głównie podczas zasypiania i w stadium 2 snu NREM [7]. W wieku przedszkolnym zaburzenie z rytmicznymi ruchami podczas snu postrzegane jest jako stan łagodny. Sporadycznie zwłaszcza u dzieci z upośledzeniem umysłowym może dochodzić do urazów głowy [6]. Spontaniczne wystąpienie tego typu zaburzeń u młodzieży i osób dorosłych jest bardzo rzadkie, a jego pojawienie się może być związane m.in. z urazem głowy czy opryszczkowym zapaleniem mózgu [7]. U osób dorosłych występowanie epizodów RMD może powodować niepokój, depresję, nadmierną senność w ciągu dnia, zmęczenie, problemy z koncentracją uwagi oraz obniżoną jakością snu nocnego [2,7]. Ruchy występujące podczas epizodów mogą być związane z występowaniem innych zaburzeń ruchowymi podczas snu. RMD mogą być powiązane z zespołem niespokojnych nóg (RLS) [7]. U większości dorosłych pacjentów z RLS ruchy RMD są świadomym sposobem stosowanym w celu powstrzymania nieprzyjemnych doznań czuciowych występujących w przebiegu RLS w spoczynku [7]. Występowanie RMD w opisywanym przypadku klinicznym dziecka 5-letniego stanowiło nawykową, utrzymującą się od wielu lat, czynność, która pojawiała się w momencie zasypiania. Nie prowadziło ono do powstawania urazów oraz nie było skojarzone z innymi zaburzeniami snu czy też funkcjonowania w ciągu dnia.



**Ryc. 1.** Histogram i architektura snu: Makrostruktura snu odpowiednia do wieku. W czasie badania nie obserwowano zaburzeń oddychania podczas snu *Histogram and sleep architecture: Sleep macrostructure was correct. The study did not show respiratory or movement disorders during sleep*



**Ryc. 2.** W okresie zasypiania i snu NREM stadium 1 (S1) zarejestrowano sporadycznie występujące rytmiczne ruchy głową, o charakterze uderzania w poduszkę. W czasie trwania epizodów nie rejestrowano w odprowadzeniach EEG czynności napadowej *During sleep and NREM 1 (S1) occasional rhythmic movements of a striking head on the pillow were recorded. During this episodes EEG seizure activity were not recorded*

Rytmiczne zaburzenia ruchowe związane ze snem powinno różnicować się z innymi zaburzeniami, jak: bruksizm, rytmiczne ssanie smoczka, ssanie kciuka i RLS [6–7]. Zajac i wsp. zauważyli, że ten rodzaj zaburzeń może współistnieć z napadami padaczkowymi [14]. Natomiast Dyken i wsp. zaobserwowali, że te rytmiczne ruchy głowy, ciałem oraz nogami nigdy nie są związane z toniczno-kloniczną aktywnością, przegryzaniem języka, nietrzymaniem moczu, złożoną aktywnością ruchową lub automatyzmami [6]. Jednocześnie w obu pracach zauważono, że najważniejszym narzędziem pozwalającym rozstrzygnąć wątpliwości diagnostyczne jest całonocne badanie polisomnograficzne z pełnym montażem EEG oraz z wideometrią [6,14]. Również domowa rejestracja wideo wykonywana przez rodziców stanowi istotną metodę diagnostyczną umożliwiającą uzyskanie cennych danych pozwalających na różnicowanie zaburzeń snu [3–4].

Badanie polisomnograficzne z wideometrią u dzieci jest istotne do różnicowania zaburzeń snu przebiegających z manifestacją ruchową z napadami padaczkowymi [2,6,15–16]. Całonocne badanie polisomnograficzne z rejestracją wideo jest w tym wypadku nie tylko źródłem cennych informacji na temat jakości snu, ale również dzięki odprowadzeniom EEG pozwala na analizę czynności bioelektrycznej mózgu. Zarejestrowanie epizodów ruchowych, które sprawiają nam trudności diagnostyczne, może przyczynić się do wykluczenia padaczki. Dyken i wsp. [6] w grupie 37 pacjentów, u których obserwowano przynajmniej jeden z podtypów RMD w całonocnym badaniu polisomnograficznym, opisali silną korelację występowania zaburzeń epizodów RMD z pojawieniem się stadium 2 snu NREM (3/4 grupy badanej) i pojawieniem się kompleksów K. U dziewięciorga dzieci opisywano epizody RMD w stadium 1 snu NREM, a u jednego pacjenta epizod wystąpił w fazie REM. Architektura snu u pacjentów była prawidłowa, w trakcie badania zarejestrowano zarówno epizody snu REM, jak i wszystkie stadia snu NREM. Obserwowane epizody nie wpływały w sposób istotny na jakość snu. Bezpośrednio przed jak i po wystąpieniu rytmicznych ruchów u pacjentów w odprowadzeniach EEG rejestrowano niskonapięciową czynność podstawową z wrzecionami snu o częstotliwości 12-14Hz i kompleksy K, co odpowiada stadium 2 snu NREM. W tym czasie nie rejestrowano czynności napadowej [6]. W opisywanym przypadku klinicznym epizody pojawiały się w czuwaniu i w stadium 1 snu NREM, zanikając przy przejściu do następnych stadiów snu, co zdaje się potwierdzać mechanizm autostymulacji konieczny do relaksacji bezpośrednio przed zaśnięciem.

Związek pomiędzy stadium 2 snu NREM a występowaniem epizodów RMD wydają się natomiast potwierdzać badania mikrostruktury snu związane z rejestracją tzw. cyklicznych wzorców naprzemiennych (*cyclic alternating pattern, CAP*) [15,17]. CAP związane mogą być wspólnym mechanizmem powstawania ze wzbudzenia, opisywanymi jako pojawiające się cyklicznie przejściowe wyżej napięciowe wyładowania, wyraźnie różniące się od tła zapisu. CAP składa się z dwóch faz: A – różni się od tła zapisu desynchronizacją zapisu EEG, B – to przerwy między fazami A, toniczna czynność theta/delta [15,18–19]. Faza A składa się z trzech podtypów: A1 w zapisie EEG pojawiają się fale delta, kompleksy K oraz fale ostre wierzchołkowe, A2 charakteryzuje się występowaniem zarówno wolnej jak i szybkiej czynności, a w A3 dominuje szybka niskonapięciowa czynność [19]. CAP związane są z niestabilnością snu NREM, a zasady ich kodowania zostały opisane przez Terzano i wsp. [19]. Manni i wsp. zauważyli, że występowanie rytmicznych ruchów związane jest z pojawieniem się fazy A, zwłaszcza A2 i A3, równocześnie rejestrują się kompleksy K i wzbudzenia [15]. W opisywanym przypadku klinicznym ze względu na zanikanie aktywności ruchowej bezpośrednio po zaśnięciu przy przejściu do stadium 2 snu NREM nie opisywano związku czynności ruchowej ze niestabilnością snu NREM.

U opisywanej 5-letniej dziewczynki wywiad rodzinny w kierunku RMD jak innych zaburzeń snu był ujemny, jednak najnowsze doniesienia, w tym praca Attarian i wsp., zwracają uwagę na możliwe rodzinne występowanie RMD [20].

Farmakologiczne leczenie RMD nie jest zwykle konieczne, ponieważ objawy ustępują w większości wypadków spontanicznie. Tylko w bardzo rzadkich przypadkach, u pacjentów dorosłych, stosuje się farmakoterapię. Najczęściej stosowane są beznodiazepiny – klonazepam w niewielkich dawkach bardzo często z pozytywnym skutkiem [7,15,21,22]. Stosowanie technik behawioralnych i przestrzeganie zasad higieny snu stanowi istotny integralny element terapii tego rodzaju zaburzeń snu [3,11,12]. W opisywanym przypadku klinicznym zastosowane postępowanie terapeutyczne obejmowało psychoedukację rodziców oraz elementy terapii behawioralno-poznawczej.

Często problemy ze snem u dzieci wiążą się z trudnościami socjoekonomicznymi i problemami natury psychologicznej rodziny. Istotnym problemem wpływającym na jakość snu małych dzieci jest zachowanie rodziców, głównie matki. Edukacja rodziców i wprowadzanie prawidłowych nawyków związanych z zasypianiem pozwalają zapobiegać większości zaburzeń snu u dzieci [3,4].

## PIŚMIENNICTWO

- [1] ICSD, American Academy of Sleep Medicine. International classification of sleep disorders, 2th ed.: Diagnostic and coding manual. 2005, Westchester, Illinois: American Academy of Sleep Medicine.
- [2] Stepanova I., Nevsimalova S., Hanusova J.: Rhythmic movement disorder in sleep persisting into childhood and adulthood. *Sleep* 2005; 28: 851–857.
- [3] Żarowski M., Steinborn B.: Zaburzenia zasypiania i ciągłości snu u dzieci. *Przewodnik Lekarza* 2004; 11/12: 22–25.
- [4] Cieślak M., Żarowski M., Steinborn B.: Polysomnographic studies in sleep related movement disorders in children. *Current topics on clinical neurophysiology, physiotherapy and manual therapy*. Ed. by: Huber J., Wytrażek M., Lipiec J., Kulczyk A. Poznań 2011, 93–105.
- [5] Walters, A.S.: Clinical identification of the simple sleep-related movement disorders. *Chest* 2007; 131: 1260–1266.
- [6] Dyken M.E., Lin-Dyken D.C., Yamada T.: Diagnosing rhythmic movement disorder with video polysomnography. *Pediatric Neurology* 1997; 16: 37–41.
- [7] Khan A., Auger R. R., Kushida C.A., et al.: Rhythmic movement disorder. *Sleep Medicine* 2008; 9: 329–330.
- [8] Avidan, A.Y., P.C. Zee, *Handbook of Sleep Medicine*. [red.] Lippincott Williams & Wilkins 2006.
- [9] Mayer, G., Wilde-Frenz J., Kurella B.: Sleep related rhythmic movement disorder revisited. *J Sleep Res* 2007; 16: 110–116.
- [10] Newell, K.M., Incedon T., Bodfish J.W., et al.: Variability of stereotypic body-rocking in adults with mental retardation. *Am J Ment Retard* 1999; 104: 279–288.
- [11] Mindell J. A., Meltzer L. J.: Behavioural Sleep Disorders in Children and Adolescents. *Annals Academy of Medicine Singapore* 2008; 37: 722–728.
- [12] Skalski M. Sen i jego zaburzenia *Przewodnik Lekarza* 2003; 6: 128–133.
- [13] Rechtschaffen A, Kales A: A manual of standardized, techniques and scoring system for sleep stages in human subjects. Washington DC, US Government Printing Office, NIH Publication 1968.
- [14] Zajac A., Skowronek-Biała B., Wesołowska E., et al.: Wstępne wyniki badań wideoelektroencefalograficznych i polisomnograficznych zaburzeń snu u dzieci. *Przegląd Lekarski* 2009; 11: 988–991.
- [15] Manni R., Terzaghi M., Sartori I., et al.: Rhythmic movement disorder and cyclic alternating pattern during sleep: a video-polysomnographic study in a 9-year-old boy. *Movement Disorders* 2004; 19: 1186–1190.
- [16] Kohyama J., Matsukurab F., Kimurac, et al.: Rhythmic movement disorder: polysomnographic study and summary of reported cases. *Brain and Development* 2002; 24: 33–38.
- [17] Parrino L., Smerieri A., Spaggiari M.C., et al.: Cyclic alternating pattern (CAP) and epilepsy during sleep: how a physiological rhythm modulates a pathological event. *Clinical Neurophysiology* 2000; 111: 39–46.
- [18] Żarowski M., Steinborn B.: Zaburzenia snu w zespole nadpobudliwości psychoruchowej z deficytem uwagi. *Neurol Dziec* 2008; 17: 49–54.
- [19] Terzano M. G., Parrino L., Smerieri A. et al.: Consensus report. Atlas, rules, and recording techniques for the scoring of cycling alternating pattern (CAP) in human sleep. *Sleep Medicine* 2001; 2: 537–553.
- [20] Attarian H., Ward N., Schuman C.: A multigenerational family with persistent sleep related rhythmic movement disorder (RMD) and insomnia. *Journal of Clinical Sleep Medicine* 2009; 5: 571–572.
- [21] Manni R., Tartara A.: Clonazepam treatment of rhythmic movement disorders. *Sleep* 1997; 20: 812.
- [22] Happe S., Ludemann P., Ringelstein E.B.: Persistence of rhythmic movement disorder beyond childhood. *Mov Disord* 2000; 15: 1296–1298.

### Adres do korespondencji:

Monika Cieślak, Katedra i Klinika Neurologii Wieku Rozwojowego, ul. Przybyszewskiego 49, 60-355 Poznań, moncieslik@gmail.com