

## 症例報告

レム期睡眠行動異常症と考えられたが睡眠中の行動は  
閉塞性睡眠時無呼吸が原因であった 1 例

藤井 陽子<sup>1)</sup> 大倉 睦美<sup>1)\*</sup> 上森 栄和<sup>2)</sup>  
谷口 充孝<sup>1)</sup> 大井 元晴<sup>1)</sup>

要旨：レム期睡眠行動異常症 (rapid eye movement sleep behavior disorder; RBD) は筋活動の抑制が欠如し夢内容と一致した行動が出現し、終夜睡眠ポリグラフ (polysomnography; PSG) にて筋活動の抑制を伴わないレム睡眠の出現を認めることで診断される。病歴上 RBD が強く疑われた 51 歳男性において常時監視下ビデオ同時記録による PSG によりノンレム睡眠、レム睡眠期に関わらず呼吸イベントに伴う覚醒中に発声、発語を認め、閉塞性睡眠時無呼吸が原因であると判明した 1 例を報告する。持続陽圧呼吸療法導入後、呼吸イベントは消失し発声、発語は認められなかった。常時監視下ビデオ同時記録 PSG の重要性を示した 1 例である。

(臨床神経 2018;58:88-92)

Key words：レム期睡眠行動異常症、閉塞性睡眠時無呼吸、レム睡眠、常時監視下ビデオ同時記録終夜睡眠ポリグラフ検査、REM sleep without atonia

## はじめに

レム期睡眠行動異常症 (rapid eye movement sleep behavior disorder; RBD) はレム睡眠中に起こる睡眠随伴症であり、臨床症状と終夜睡眠ポリグラフ検査 (polysomnography; PSG) にて筋活動抑制を伴わないレム睡眠 (REM sleep without atonia; RWA) の出現を認めることで診断される。

パーキンソン病 (Parkinson Disease; PD) やレビイ小体型認知症 (Dementia with Lewy body; DLB) 等の神経変性疾患の早期症状として神経内科領域でも RBD が注目されるようになってきている<sup>1)2)</sup>。

今回、病歴では RBD が疑われたが常時監視下ビデオ同時記録による PSG により睡眠中の行動は閉塞性睡眠時無呼吸 (obstructive sleep apnea; OSA) の関与が判明した mimic RBD (RBD 類似症状を示すが、異なる病態) の 1 例を報告する。

## 症 例

症例：51 歳、男性

主訴：寝言、睡眠中の行動、起床時爽快感の欠如

既往歴：高血圧、高脂血症、WPW 症候群。

家族歴：血縁者に神経変性疾患なし。

現病歴：23 歳結婚当初から家人に寝言を指摘されており、時に大声ではっきりした寝言であった。10 年前 (41 歳) からは体動も伴い、寝言の頻度が増え、3 年前 (48 歳) よりベッドや枕を叩いたりするなどの行動が出現し、家人が途中で起こすことが多くなった。寝言や行動は一晚に 2 時間ごとに 2~3 回ということもあり、家人が途中で覚醒させた直後は夢想起が可能であり、夢内容は不快な内容で仕事の夢 (顧客よりのクレーム対応や部下を叱るなど) が多かった。1 年前よりいびき、熟睡感の欠如、日中の眠気を伴うようになり、近医を受診した。近医で終夜パルスオキシメータを施行し、1 回目、Oxygen Desaturation Index: ODI (3%) 11.2/h, ODI (2%) 21.0/h, 2 回目 ODI (3%) 11.4/h, ODI (2%) 22.0/h の結果であった。当センターに紹介受診した。

現症：身長 177 cm 体重 83 kg BMI 26.5 kg/m<sup>2</sup>。軟口蓋低位認めるも扁桃肥大なし。神経学的所見にて特記すべきことなし。自覚的な嗅覚障害なし 便秘なし。

検査所見：診断のため、常時監視下ビデオ同時記録 PSG を行った。PSG は、Rechtschaffen and Kales の原法に従って行い<sup>3)</sup>、10~20 法による脳波 (EEG) 6 誘導 (F3~M2, F4~M1, C3~M2, C4~M1, O1~M2, O2~M1)、眼電図 (EOG)、オトガイ筋筋電図 (chin EMG) に加え、心電図 (EKG)、左右の前脛骨筋表面筋電図、鼻・口からの気流、胸部・腹部の呼吸

\*Corresponding author: 大阪回生病院睡眠医療センター [〒 532-0003 大阪市淀川区宮原 1-6-10]

<sup>1)</sup> 大阪回生病院睡眠医療センター

<sup>2)</sup> 済生会奈良病院睡眠呼吸障害センター

(Received April 29, 2017; Accepted December 12, 2017; Published online in J-STAGE on January 31, 2018)

doi: 10.5692/clinicalneuroi.cn-001051

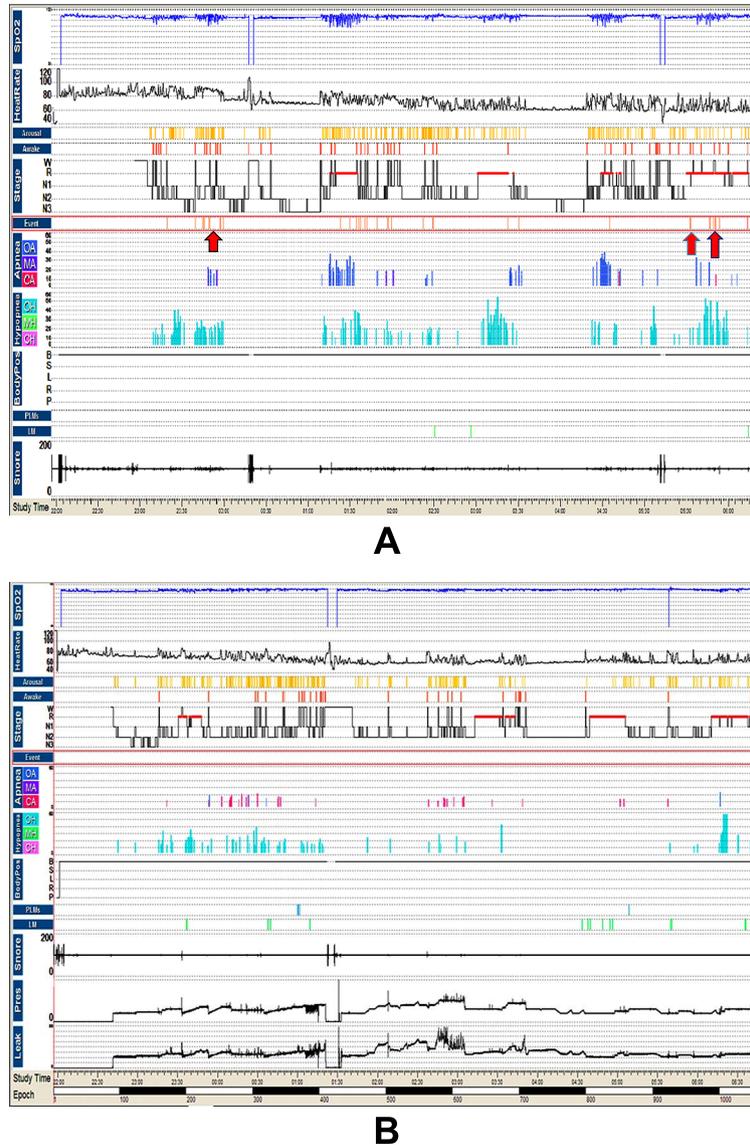


Fig. 1 Hypnogram of the case.

A. Hypnogram of the case during the diagnostic night. Events happened during both REM sleep and NREM sleep. W: wake, R: REM sleep, N1: stageN1, N2: stageN2, OA: obstructive apnea, MA: mixed apnea, CA: central apnea, OH: obstructive hypopnea, Body Pos: body position, PLMS: periodic leg movements during sleep, LM: leg movements, Event: epochs which his speech or vocalization was detected. The arrows indicate the events which are shown in detail below. B. Hypnogram of the case with continuous positive airway pressure. No vocalization and speech occurred. Pres: the pressure of CPAP machine.

運動を記録した。さらに体位センサー、パルスオキシメータによる血中酸素飽和度 (SpO<sub>2</sub>) を測定した。睡眠中の発語や四肢の動きや行動を確認するために、同時にビデオ記録を患者の同意を得て行った。無呼吸・低呼吸 (apnea hypopnea)、周期性下肢運動 (periodic leg movement during sleep; PLMS: 下肢における足関節の背屈を特徴とした常同的な運動) および覚醒反応 (EEG arousal) については、それぞれ米国睡眠医学会 (American Academy of Sleep Medicine; AASM) の Practice

parameters に沿って視察判定を行い、PLMS index (PLMI: 1時間あたりの PLMS の数)、覚醒反応指数 (1時間あたりの覚醒反応の数) を算出した<sup>4)</sup>。低呼吸は、呼吸センサーの最大振幅の振れがイベント前の基準値より30%以上の低下、10秒以上の持続、酸素飽和度がイベント前の基準値から3%以上低下あるいは覚醒反応を伴うものとし、1時間あたりの無呼吸低呼吸指数 (apnea hypopnea index; AHI) を算出した。

診断のため行った PSG のヒポグラム (Fig. 1A)・PSG 詳

Table 1 Sleep parameters of the case.

Total recording time	444.5 min
Total sleep time	395.5 min
Sleep efficiency	89.9%
Sleep latency	9.5 min
%Stage N1	20.4%
%Stage N2	48.7%
%Stage N3	8.6%
%Stage REM	22.4%
REMLatency	130.0 min
Aapne Hypopnea Index	30.6/hr. NREM: 24.1 REM: 48.8
Arousal Index	33.8/hr.
Respiratory with Arousal Index	23.5/hr.
Periodic legs movement Index	2.0/hr.

REM: rapid eye movement, NREM: non-REM.

細データ (Table 1) を示す。ノンレム睡眠, レム睡眠期に関わらず呼吸イベントに伴う覚醒中に発声・発語を認めた (Fig. 2A, B)。発語の内容ははっきりと聞き取れるものもあった。また、この際に四肢の動きを認めるが、激しい体動は認めなかった。起床時に検査担当者が夢内容の確認を行うも、「夢は見たが、内容は覚えていない」という返答であった。呼吸イベントは閉塞性無呼吸 61 回/夜, 閉塞性低呼吸 141 回/夜を認め、睡眠 1 時間当たりの AHI 30.6 回 (ノンレム睡眠期 24.1, レム睡眠期 48.8) の結果より OSA と診断した。持続陽圧呼吸療法 (continuous positive airway pressure; CPAP) 導入のため PSG 下で呼吸イベントや睡眠の状態を見て CPAP 圧の調整を施行した。やや圧の決定に難渋したが最終的に呼吸イベントの消失と睡眠の安定を得られた。CPAP 導入時のヒプノグラム (Fig. 1B) を示す。この際、発語、体動の出現は認められなかった。また、2 度の PSG において RWA と判定するエピソードはなかった。なお通常 RWA の判定は The AASM Manual for Scoring of Sleep and Associated Events をもとに当センターのルールで行っている<sup>5)</sup>。

経過：検査夜翌日に CPAP 機器を圧 max/min = 6.0/4.0 の auto 圧設定で処方し、自宅での CPAP 療法を開始した。1 か月後の診察時における使用状況は SD カードより確認し、使用率 100% 平均使用時間 4 時間 53 分 機器判定 AHI 4.9/h であり、CPAP 療法のアドヒランスは良好であり、使用開始後には以前のような大声での寝言や体動の出現はみられていない。

## 考 察

神経変性疾患の早期症状として RBD が注目されており、変性疾患予防を見据えた RBD のスクリーニングに質問票が用いられることも増えてきた<sup>2)6)</sup>。睡眠関連疾患国際分類第 3 版

(International classification of sleep disorders 3rd ed; ICSD-3)<sup>7)</sup> における RBD の診断基準では典型的な病歴がある場合、PSG で RWA を認めなくても RBD と診断は可能であるとされている。一方で OSA が RBD 様の症状を示すことは以前より報告されており<sup>8)</sup>、ICSD-3 でも鑑別診断に挙げられている。RBD 症例における発語行動の特徴として、ベッドパートナー等に起こされた際に夢想起が可能で発語行動内容と一致すること、比較的すんなりと覚醒することが一つの特徴である。発生する時間も入眠後 90 分~120 分後や 2 時間ごとなどレム睡眠の周期を疑う病歴が取れることもある。ただし OSA 症例で本症例のようにレム睡眠依存性 (レム睡眠に AHI が極端に増悪する) の場合は、同様にレム周期を思わせる時間帯に発声に気づかれ、夢想起も可能であることがあり、病歴のみでの鑑別は困難である。さらに呼吸イベントの覚醒後の発声行動は、覚醒後とはいえ通常すぐに再入眠するため RBD と同様に本人が自覚しないものも多い。

本症例では 5 点以上で RBD 疑いとされる RBD スクリーニング質問票 (日本語版) が 8 点であり、病歴上 2 時間ごとの発語や行動に気づいておりさらに夢想起ができる等の臨床症状は RBD が強く疑われる。しかし PSG により重症 OSA が判明し、さらには常時監視下ビデオ同時記録で施行したために睡眠中の異常行動に見えた発声、発語や体動は呼吸イベントによる覚醒後のものと判明した。本症例では OSA を CPAP 療法で治療したところ行動は消失した。

RBD と OSA は中年以降の男性に多いという共通点があり合併例も多い<sup>9)</sup>。合併患者においては、閉塞性呼吸イベントの回復期に覚醒反応とともにオトガイ筋筋活動の上昇が出現するために、レム睡眠中の RWA の判定が困難である。そのため OSA 合併例では CPAP 療法後に再度 PSG を行うことにより RWA を確認し、診断に至ることも多い。RBD を疑う症例では本来確定診断のために PSG を監視下で行うことが必要である。監視下 PSG を行える施設が少ないのが日本の現状ではあるが<sup>10)</sup>、今後 RBD 症例において神経変性疾患への罹患予測等を行うとなれば必ず PSG による確認が必要となる。DLB の臨床診断基準 (2017 年改訂版)<sup>11)</sup>によると、RBD が中核的特徴の一つとされ、RWA が指標的バイオマーカーの一つとされており、より PSG が重要となってくる。RBD 疑い症例における PSG は行動観察の必要性、患者の安全管理の面からも常時監視が必須である<sup>11)</sup>。PSG にて RWA を確認した OSA 合併の RBD 症例においても、OSA の治療のみで睡眠中の行動が落ち着くことは臨床上よく経験する<sup>12)</sup>。RBD 症例における OSA 治療により睡眠が安定したことが一つの要因であると考えられるが、本症例ではノンレム睡眠、レム睡眠期に関わらず呼吸イベントに伴う覚醒中に発声・発語を認めたこと、CPAP 導入時の PSG では、呼吸イベントと覚醒反応が減少し診断 PSG に認められた発声なかったこと、またこの際通常覚醒反応の減少で RWA の判定が容易になるが、RWA は確認されなかったことにより OSA が睡眠中の行動の原因だと診断し mimic RBD と考えた。さらに、AHI がレム睡眠期 48.8、ノンレム睡眠期 24.1 とレム睡眠期で呼吸イベントがより重

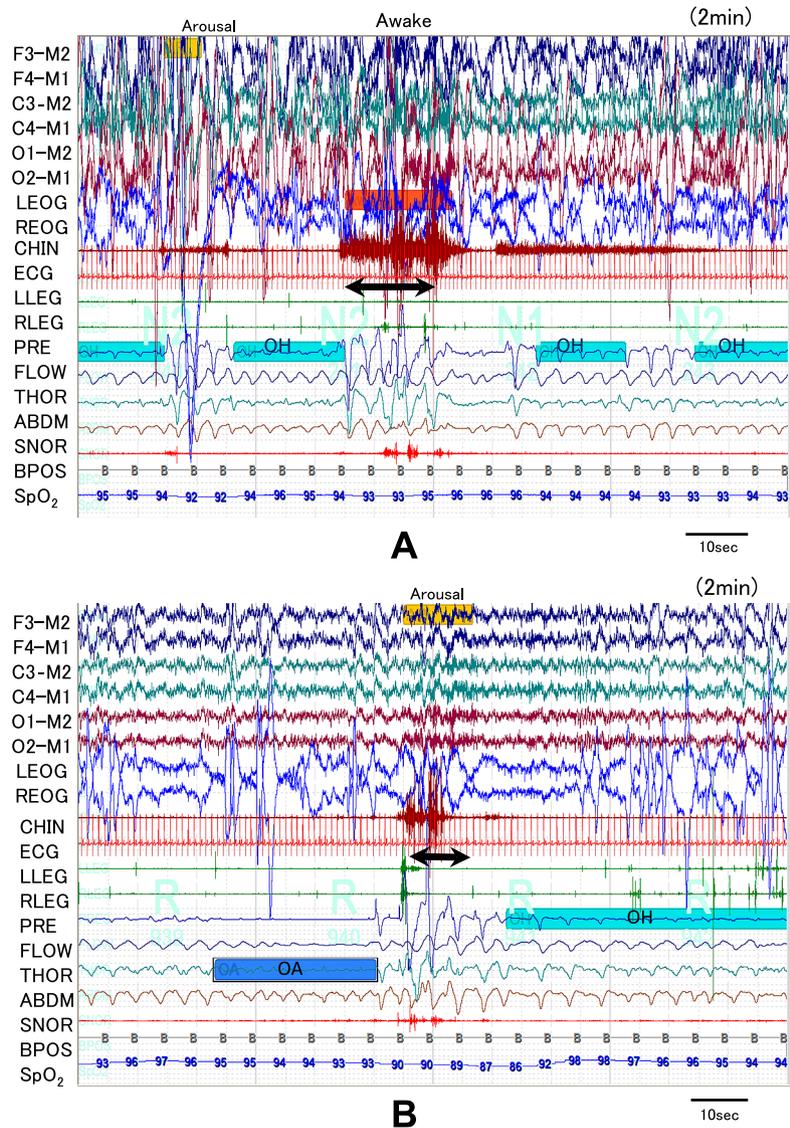


Fig. 2 Polysomnography examples of vocalization or speech.

A. Vocalization occurred during EEG arousal triggered by obstructive hypopnea in non REM sleep. B. Unclear speech occurred during EEG arousal triggered by obstructive apnea in REM sleep. LEOG: left electrooculography, REOG: right electrooculography, THOR: thorax effort, ABDM: abdominal effort, OH: obstructive hypopnea, OA: obstructive apnea, ECG: electrocardiogram, LLEG: left leg electromyography, RLEG: right leg electromyography, PRE: nasal pressure, FLOW: air flow SNOR: snore, BPOS: body position.

症であるため、臨床的にRBDを疑わせる所見(2時間ごとに起こり、夢想起可能)につながったと考えられた。

本症例のように臨床症状よりはRBDが強く疑われる症例でOSAが病因であったことは重要であり、さらにはOSA疑いでPSGを施行する際にも夢内容に即した行動は患者やベッドパートナーが病気と認識していないことも多いので、PSGを行う前に睡眠中の様子を聴取しておくことは安全管理、診断において必須である<sup>12)</sup>。今回の症例はOSAが病因であったmimic RBDの症例であるが、他のmimic RBDの要因として、ノンレムパラソムニア(睡眠遊行症等)、前頭葉てんかん、周

期性四肢運動異常などが報告されている<sup>7)14)</sup>。ノンレムパラソムニアは通常入眠後2時間内に起こることが多く、睡眠関連てんかんは通常常同的な行動がみられることが多いが、病歴のみでは鑑別がつかないことも多く、鑑別のためにはPSGの施行が重要となる。今後神経変性疾患の診療においてRBDの診断の重要性は増すと考えられる。本症例のようなOSA症例も同様の症状をきたすことに注意が必要であり、また常時監視下ビデオ同時記録PSGの必要性を示した症例であった。

※本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

## 文 献

- 1) Iranzo A, Molinuevo JL, Santamaria J, et al. Rapid-eye-movement sleep behavior disorder as an early marker for a neurodegenerative disorder: a descriptive study. *Lancet Neurol* 2006;5:572-577.
- 2) 下畑亨良, 井上雄一, 平田幸一. Rapid eye movement (REM) 睡眠行動障害の診断, 告知, 治療. *臨床神経* 2017;57:63-70.
- 3) Rechtschaffen A, Kales A, editors. A manual of standardized terminology, techniques and scoring system for sleep stages of human subjects. U.S. Department of Health, Education and Welfare. Washington DC: Public Health Service; 1968.
- 4) Berry RB, Brooks R, Gamaldo CE, et al. The AASM manual for the scoring of sleep and associated events version 2.0. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine; 2014.
- 5) 杉田淑子, 大倉睦美, 谷口充孝ら. REM 睡眠行動異常症における REM sleep without atonia (RWA) の検討. *臨床神経生理学* 2012;40:169-176.
- 6) 鈴木圭輔, 宮本雅之, 平田幸一. 高齢者睡眠障害の特徴とその対策. *日本内科学会雑誌* 2014;103:1885-1895.
- 7) American Academy of Sleep Medicine. International classification of sleep disorders, 3rd ed. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine; 2014.
- 8) Iranzo A, Santamaria J. Severe obstructive sleep apnea/hypopnea mimicking REM sleep behavior disorder. *Sleep* 2005;28:203-206.
- 9) 大倉睦美, 谷口充孝, 杉田淑子ら. 睡眠診療専門施設を受診する REM 睡眠行動異常の臨床像—神経変性疾患との関連を中心に—. *Brain Nerve* 2007;59:1265-1271.
- 10) 立花直子. 睡眠に関連する運動・行動異常. *臨床神経* 2016; 56:541-549.
- 11) McKeith IG, Boeve BF, Dickson DW, et al. Diagnosis and management of dementia with Lewy Bodies. *Neurology* 2017;89: 1-13.
- 12) 大倉睦美. 睡眠随伴症 (レム睡眠行動異常症など). *Medical Technology* 2012;40:959-964.
- 13) 河合 真. パラソムニア睡眠中の異常行動. 河合 真著, 香坂 俊監修. 極論で語る睡眠医学. 東京:丸善出版; 2016. p. 53-69.
- 14) Gaig C, Iranzo A, Pujol M, et al. Periodic limb movements during sleep mimicking REM sleep behavior disorder: A new form of periodic limb movement disorder. *Sleep* 2017;40:1-6.

## Abstract

## A case of severe obstructive sleep apnea mimicking REM sleep behavior disorder

Yoko Fujii, R.P.S.G.T.<sup>1)</sup>, Mutsumi Okura, M.D., Ph.D.<sup>1)</sup>, Hidekazu Uemori, M.D.<sup>2)</sup>,  
Mitsutaka Taniguchi, M.D.<sup>1)</sup> and Motoharu Ohi, M.D., Ph.D.<sup>1)</sup>

<sup>1)</sup>Sleep Medical Center, Osaka Kaisei Hospital

<sup>2)</sup>Sleep Disordered Breathing Center, Saiseikai Nara Hospital

The rapid eye movement (REM) sleep behavior disorder (RBD) is a parasomnia characterized by dream-enacting behaviors related to the loss of the normal generalized skeletal muscle atonia during REM sleep, and shows REM sleep without atonia (RWA) during polysomnography (PSG). Patients with idiopathic RBD have been known to have a significantly increased risk of developing one of the  $\alpha$ -synucleinopathies later in life, therefore the diagnosis of RBD is very important and must be dealt with carefully. A 51-year-old man was identified presenting dream-enacting behaviors and unpleasant dreams suggesting the diagnosis of RBD, in addition to snoring and excessive daytime sleepiness. Attended video-PSG excluded RBD showing REM sleep with atonia and without increased phasic EMG activity, and diagnosed with severe obstructive sleep apnea (OSA) with an apnea-hypopnea index of 30.1 demonstrating that the reported abnormal sleep behaviors occurred only during respiratory event-induced arousals. Continuous positive airway pressure therapy eliminated the abnormal behaviors, unpleasant dreams, snoring and daytime hypersomnolence. This case shows that severe OSA mimic the symptoms of RBD and that attended video-PSG is necessary to establish the diagnosis of RBD, and identify or exclude other causes of dream-enacting behaviors.

(*Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol)* 2018;58:88-92)

**Key words:** REM sleep behavior disorder, obstructive sleep apnea, REM sleep, attended video-polysomnography, REM sleep without atonia