

# Revue historique sur le syndrome d'apnée obstructive du sommeil chez l'enfant

## Historical review on obstructive sleep apnea in children

Y.H. Chien, C. Guilleminault\*

Stanford university sleep medicine program, Stanford, CA 94305, États-Unis

Disponible en ligne sur

**ScienceDirect**  
[www.sciencedirect.com](http://www.sciencedirect.com)

### Summary

An historical review on the discoveries on pediatric obstructive sleep apnea syndrome and sleep-disordered breathing is outlined. Starting with the description by Dickens of “Joe” the obese, snoring and sleepy individual, the authors trace more than 50 years of questions and research starting with the lean adult to the child and from the recognition of obstructive sleep apnea syndrome to the outline of upper-airway resistance syndrome. The pathophysiological knowledge on sleep-disordered breathing has evolved over time, as have treatment approaches in children, from tracheostomy to positive-airway-pressure therapy, to adenotonsillectomy with and without orthodontic treatments to oral-facial myofunctional therapy. Comorbidities of sleep-disordered breathing are multiple, involving cognition, behavioral, and mood disorders, cardiovascular impairment, etc. There have been many advances in a short time due to the investigation of OSAS, but many questions still need responses.

© 2016 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

### Résumé

Cette revue fait un rappel historique des découvertes sur le SAOS de l'enfant. Depuis Dickens et sa première description d'un individu obèse, ronfleur et somnolent, les auteurs ont retracé plus de 50 ans de recherche et de questionnements sur ce sujet : la reconnaissance du syndrome d'apnée obstructive du sommeil (SAOS) chez l'adulte non obèse et chez l'enfant ainsi que la découverte du syndrome de haute résistance des voies aériennes supérieures. Les connaissances physiopathologiques sur le SAOS ont évolué ainsi que les prises en charge chez l'enfant qui sont passées de la trachéotomie, à la pression positive continue, puis à l'adéno-amygdalectomie combinée aux traitements orthodontiques et aux séances de kinésithérapie maxillo-faciale. Les conséquences de ce syndrome ne sont pas négligeables et atteignent aussi bien la cognition, le comportement, l'humeur, le système cardiovasculaire. De nombreuses portes ont été ouvertes en quelques années grâce à l'étude du SAOS mais beaucoup de questions restent encore sans réponse.

© 2016 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

## 1. Apnées du sommeil avec et sans obésité pickwickienne

Charles Dickens, Burwell, Osler et d'autres ont présenté dans leurs œuvres ces individus obèses et ronfleurs qui s'endormaient dans n'importe quelle situation et frappaient l'imagination par leur comportement anormal [1,2]. Bickelmann et al. ont donné le nom de « syndrome de Pickwick » au syndrome médical, rappelant ainsi la description donnée par Dickens [2]. Mais c'est l'école allemande qui, la première, a enregistré ces sujets au ventre proéminent et au ronflement magistral et a montré la présence « d'apnées obstructives »

durant leur sommeil. Werner Gerardy, un spécialiste de médecine interne, a fait des enregistrements polygraphiques de deux patients obèses « pickwickiens » à l'hôpital universitaire de Heidelberg et lors d'un rapport publié en 1962 a signalé la présence « d'apnées obstructives répétées » et la reprise d'une respiration normale avec un ronflement important associé à une tachycardie [3]. La diffusion internationale de cette découverte a été faite par un élève du groupe : Kuhn (qui a changé son nom en Kuhlo) et qui a poursuivi les travaux initiaux [4,5]. Il a été le premier à traiter un pickwickien par trachéotomie en 1969, démontrant aussi que la somnolence était liée à la fragmentation du sommeil entraînée par les apnées [6]. Les présentations, surtout orales, de Kuhlo ont attiré l'attention de chercheurs tels Gastaut et son ami Lugaresi [7], qui ont reproduit les découvertes allemandes et se sont lancés dans des investigations

\* Auteur correspondant.  
e-mail : [cguil@stanford.edu](mailto:cguil@stanford.edu) (C. Guilleminault).

poussées des anomalies du sommeil chez les obèses pickwickiens, y compris des investigations sur les changements cardiovasculaires observés lors des apnées du sommeil. Le syndrome de Pickwick initialement décrit par Burwell semblait être en fait, une association de différents syndromes. Lugaresi et al. ont décidé de réunir des spécialistes internationaux pour disséquer ce « syndrome » et pour démontrer l'existence d'un sous-groupe particulier chez ces individus obèses et somnolents. Ils ont organisé une réunion internationale à Rimini (Italie) en 1972 sous le titre « Hypersomnia and sleep apnea ». William C. Dement de l'université de Stanford a été invité, mais il avait peu de connaissance sur le sujet et demanda à Christian Guilleminault qui avait déjà fait des recherches sur le sujet à Paris et qui poursuivait ses travaux à Stanford depuis son arrivée 4 mois plus tôt en Californie, de participer à cette réunion. Guilleminault était le plus jeune et le moins connu des participants et il avait une vue différente sur le sujet central de la réunion « l'obèse pickwickien ». Sa présentation portait sur des sujets au poids normal se plaignant d'insomnie avec apnées centrales et obstructives et sur des narcoleptiques avec cataplexie de poids normal se présentant aussi avec des apnées centrales et obstructives. Il voulait démontrer que les apnées du sommeil n'étaient pas l'apanage des pickwickiens obèses mais un phénomène présent chez d'autres individus indépendamment d'une association à l'obésité [8]. Au cours de cette réunion, l'école de Strasbourg, avec Londsorfer, Kurtz [9] et un jeune interne Jean Krieger [10], a également montré que le phénomène d'occlusion des voies aériennes supérieures pouvait ne pas être complet, entraînant néanmoins des réactions d'éveil à l'électroencéphalogramme (EEG). Ainsi est né le terme « d'hypopnée obstructive ». Parallèlement, Duron, un pneumo-physiologiste de l'école de Gastaut, a montré la présence de différentes apnées chez le même sujet obèse pendant la même nuit et dissocié apnées obstructives, mixtes et centrales à partir des résultats d'enregistrements polygraphiques [11]. Comme il était plus facile d'étudier des obèses dormant malgré de nombreux cathéters, les travaux sur les sujets non obèses sont restés initialement ignorés. Pour bien affirmer l'existence d'un syndrome indépendant du poids, Guilleminault et Dement ont créé les entités « sleep-apnea-syndrome », et « obstructive-sleep-apnea-syndrome (OSAS) » insistant sur la généralisation du problème des « apnées du sommeil » [12].

## 2. Syndrome d'apnée obstructive du sommeil chez l'enfant et syndrome de haute résistance des voies aériennes supérieures

Simultanément Guilleminault étudiant le sommeil des enfants a retrouvé les apnées obstructives décrites chez l'adulte. Il a alors accumulé les cas et les a rapportés

brèvement en 1973 [13], puis avec un plus grand nombre d'observations en 1976 [14]. La présentation clinique et les résultats polygraphiques étaient exposés ainsi que l'évolution après trachéotomie. Mais ce traitement était réservé à un petit nombre. L'ablation des amygdales et des végétations était une approche moins traumatisante et l'amélioration des signes cliniques après cette intervention a bien été décrite en 1979 [15]. Les cas pédiatriques s'accumulaient et la possibilité que ce trouble puisse être responsable de multiples complications a été démontrée [16]. Guilleminault et al. ont alors décrit des enfants avec des symptômes et des signes analogues à ceux liés aux apnées du sommeil... mais sans apnée ou hypopnée lors de l'enregistrement polygraphique nocturne. Chez ces enfants, il existait seulement une augmentation de l'effort respiratoire [17] (bien montrée par la mesure de l'effort respiratoire par l'intermédiaire d'une sonde de pression œsophagienne) comme élément anormal lors de l'enregistrement. Ces auteurs ont rapporté les conséquences cliniques de cette résistance anormale des voies aériennes supérieures sans impact réel sur la saturation en oxygène, mais associée à des perturbations répétées de l'EEG au cours du sommeil. Ils ont insisté sur la multiplicité des symptômes et en particulier l'impact sur l'attention, la mémoire, les mauvais résultats scolaires et l'hyperactivité diurne [17]. Les troubles du comportement de l'enfant semblaient communs, allant de manifestations d'hyperactivité et d'inattention à des troubles liés au sommeil comme le somnambulisme et les terreurs nocturnes [18]. Peu de laboratoires utilisaient alors une sonde œsophagienne lors des études polysomnographiques. C'est pourquoi, bien que la notion de troubles apnéiques lors du sommeil chez l'enfant gagnât en crédibilité, l'existence d'un syndrome lié à une résistance anormale des voies respiratoires supérieures resta longtemps ignorée. Guilleminault et al. ont continué leurs investigations chez des enfants, des adolescents et des adultes, accumulant les cas et finalement, près de 9 ans après leur article princeps, ils ont présenté le tableau clinique observé chez l'adulte et lui ont donné le nom de « syndrome de haute résistance des voies aériennes supérieures », démontrant son association au ronflement [19]. Ce syndrome a de multiples conséquences y compris cognitives et cardiaques. Le développement de la canule nasale avec enregistrement des variations de pression a permis d'étudier les limitations de débits aériens et de pratiquer des enregistrements nocturnes sans enregistrement systématique de la pression œsophagienne.

## 3. Nécessité d'un arsenal thérapeutique plus large que l'adéno-amygdalectomie

Divers traitements ont été étudiés et proposés chez l'enfant car l'ablation des amygdales et des végétations n'est pas toujours un succès thérapeutique : en 1989, Guilleminault

et al. [20] ont publié des cas de récurrence chez des adolescents d'un syndrome d'apnées du sommeil, malgré une disparition des symptômes et la normalisation des tests polygraphiques observée après ablation des amygdales et des végétations. Quelques années plus tard, cette observation a été faite à nouveau par Tasker et al. [21]. La récurrence était associée à des modifications de la croissance oro-faciale. Il fallait donc avoir un arsenal thérapeutique plus large. Pour un groupe d'adolescents toujours symptomatiques après ablation des amygdales et des végétations, la mise en place d'une ventilation en pression positive continue (PPC) a été proposée dans les cas les plus difficiles à traiter de même que l'adaptation des techniques de chirurgie maxillo-faciale, jusqu'alors réservées à des enfants ayant des malformations cranio-faciales [22,23].

#### 4. SAOS, obésité et comorbidités : existe-t-il des liens de causalité ?

Un phénomène nouveau est apparu dans le monde moderne : l'obésité en tant que problème de santé publique. Apparue d'abord chez l'adulte, l'obésité est devenue un problème important chez l'enfant. Elle entraîne des troubles cardiovasculaires mais aussi cognitifs, psychiatriques, endocriniens, métaboliques et inflammatoires. La répartition de la graisse, en particulier chez l'homme, a des conséquences respiratoires, en particulier lors du sommeil, avec développement d'un syndrome restrictif thoracique et d'un syndrome obstructif des voies aériennes supérieures du fait des dépôts graisseux dans la langue et dans le cou. Le problème de l'obésité chez l'enfant est devenu un problème nosologique : les apnées du sommeil chez les sujets non obèses ont des conséquences métaboliques, inflammatoires, psychiatriques, cognitives, et bien sûr respiratoires. Or l'enfant obèse présente également des apnées du sommeil : à quoi attribuer toutes les comorbidités observées sur ce terrain, aux apnées du sommeil ou à l'obésité [24] ? Dans les études cliniques, on a à faire à un enfant ou un adolescent obèse présentant des troubles respiratoires du sommeil. Il est tentant de déclarer que les comorbidités observées sont liées au syndrome d'apnée du sommeil, bien qu'aucune preuve n'existe de ce lien, l'obésité isolée, sans apnée, pouvant entraîner tous ces troubles. En effet, l'hyperactivité des adipocytes liée à l'obésité entraîne elle-même de multiples comorbidités [24]. Les appareils à pression positive améliorent à la fois les comorbidités liées à l'obésité et celles liées aux apnées du sommeil. On sait bien que la réponse à un traitement est une mauvaise voie pour démontrer une relation de causalité, notamment ici car la PPC améliore à la fois les conséquences directes de l'obésité mais aussi celles, semblables, des apnées obstructives. L'enfant obèse avec apnées est donc à distinguer de l'enfant non obèse avec apnées du sommeil, comme l'a proposé David Gozal. Le rôle direct des troubles respiratoires liés au sommeil ne peut être bien étudié qu'en l'absence de toute ambiguïté. Ainsi

l'étude de l'enfant de poids normal avec troubles respiratoires du sommeil donne toujours des résultats plus fiables que ceux observés chez l'enfant obèse avec des troubles similaires. L'étude de ce type d'enfants a bien démontré les effets négatifs du syndrome d'apnées obstructives du sommeil (SAOS) sur la sphère cardiovasculaire avec non seulement disparition de la variation nyctémérale de la pression artérielle, mais aussi développement d'une hypertension et succession de brady-tachycardies et de certains troubles de conduction en particulier de pauses sinusales de durée anormale [25,26]. Des troubles cognitifs ont été mis en évidence chez les enfants souffrant d'un SAOS par différentes techniques et tests. Le lien entre les troubles du comportement (enfant hyperactifs et inattentifs) [27], les troubles émotionnels (dépression), les troubles du comportement nocturne comme le somnambulisme, les terreurs nocturnes ou l'énu-résie nocturne, et les troubles respiratoires du sommeil ont bien été démontrés [28,29]. La mise en évidence du développement de phénomènes inflammatoires secondaire aux troubles du sommeil a demandé plus d'effort mais cette relation est maintenant bien établie [30]. En revanche, l'association entre troubles métaboliques et apnées du sommeil est toujours débattue : trop d'études faites chez des enfants obèses ne permettent pas d'affirmer ce lien de causalité.

#### 5. Impact de la respiration buccale sur la croissance oro-naso-faciale

La récurrence des troubles respiratoires nocturnes après adéno-amygdalectomie a amené à étudier de plus près les éléments anatomiques qui pouvaient être impliqués et le rôle des structures oro-faciales [20,21]. Les orthodontistes connaissent depuis longtemps le rôle négatif sur la respiration d'une mauvaise croissance oro-naso-faciale. Même si les enregistrements polysomnographiques n'étaient pas encore pratiqués, l'impact de grosses amygdales et végétations sur la croissance oro-naso faciale avait déjà été bien décrit dans les années 1960–1970. Des études expérimentales chez le singe ont bien montré le rôle de l'interaction continue entre l'action musculaire et la croissance osseuse [31] et, chez l'enfant, l'impact d'un mauvais développement oro-naso-facial sur la respiration et sur les troubles du comportement a été bien établi [32–34]. Le rôle de l'orthodontie pendant le développement de l'enfant et l'impact de traitements orthodontiques sur certains des troubles observés a ouvert un nouveau champ d'interventions [35,36]. Progressivement s'est affirmé le rôle d'un développement approprié de la région oro-naso-faciale sur les voies aériennes supérieures et sur le maintien d'un flux respiratoire normal lors de la veille et plus encore lors du sommeil. L'intégration des connaissances des orthodontistes sur le sujet a été réalisée dans l'étude des apnées et de leur traitement. Pirelli et al. ont montré le rôle que pouvait apporter des techniques telles que la distraction maxillaire

rapide ou la distraction bi-maxillaire dans la prise en charge du SAOS de l'enfant [35,37]. L'utilisation de la myothérapie fonctionnelle, a été un appoint non seulement dans le traitement des troubles respiratoires lors du sommeil [38], mais aussi dans la compréhension des phénomènes épigénétiques du développement oro-naso-facial qui jouent un rôle important dans la genèse de ces troubles respiratoires lors du sommeil chez l'enfant.

## 6. Conclusion

L'étude des troubles respiratoires lors du sommeil a ouvert un important champ de recherche qui a touché et touche encore de nombreux problèmes associés au développement harmonieux de l'enfant. Il reste encore beaucoup de questions sans réponse mais de nombreuses portes ont été ouvertes en quelques années grâce à l'étude du SAOS.

## Déclaration de liens d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de liens d'intérêts.

## Références

- [1] Dickens C. The posthumous papers of the Pickwick club. London: Chapman and Hall; 1837.
- [2] Bickelmann AG, Burwell CS, Robin ED, et al. Extreme obesity associated with alveolar hypoventilation. A Pickwickian Syndrome. *Am J Med* 1956;21:811–8.
- [3] Gerardy W, Herberg D, Kuhn HM. Vergleichende untersuchungen der lungfunktion und der elektroencephalogramms bei zwei patienten mit Pickwickian Syndrom. *Zeitschrift fur Klinische Medizin* 1960;156:362–80.
- [4] Jung R, Kuhlo W. Neurophysiology studies of abnormal night sleep in the Pickwickian Syndrome. In: Akert K, Bally C, Shade JP, editors. *Progress in brain research: sleep mechanisms*, 18. Amsterdam: Elsevier; 1965. p. 14–159.
- [5] Kuhlo W. Neurophysiologische und klinische untersuchungen beim Pickwick-Syndrom. *Arch Psychiatr Nervenkr* 1968;211:170.
- [6] Kuhlo W, Dol E, Franc MC. Erfolgreiche behandlung eines Pickwick Syndrom durch eine dauertracheal kanule. *Deutsch Med Wschr* 1969;94:1286–90.
- [7] Lugaresi E, Coccagna G, Petrella A, et al. Il disturbo de sonno e del respire nella syndrome di Pickwick. *Sist Nerv* 1968;1:38–50.
- [8] Guilleminault C, Eldridge FL, Dement WC. Insomnia, narcolepsy and sleep apneas. *Bull Physiopathol Respir* 1972;8:1127–38.
- [9] Kurtz D, Meunier-Carus J, Baptst-Reiter J, et al. Problèmes nosologiques posés par certaines formes d'hypersomnie. *Rev EEG Neurophysiol* 1971;1:227–30.
- [10] Krieger J. Les séquences hypno-apneiques chez les sujets Pickwickiens : leur sémiologie et leur répartition : [Thèse] médecine. Strasbourg: Faculté de Médecine de Strasbourg; 1975.
- [11] Duron B, Quichaud J, Fullana N. Nouvelles recherches sur le mécanisme des apnées du syndrome de Pickwick. *Bull Pathophysiol Respir* 1972;8:1277–88.
- [12] Guilleminault C, Tilkian A, Dement WC. The sleep apnea syndromes. *Annu Rev Med* 1976;27:465–84.
- [13] Guilleminault C, Dement WC, Monod N. Syndrome de mort subite du nourrisson : apnées au cours du sommeil. Nouvelle hypothèse. *Nouv Presse Med* 1973;2:1355–8.
- [14] Guilleminault C, Eldridge F, Simmons F, et al. Sleep apnea in eight children. *Pediatrics* 1976;58:23–30.
- [15] Kravath R, Pollak C, Borowiecki B. Hypoventilation during sleep in children with lymphoid airway obstruction treated by a nasopharyngeal tube and tonsillectomy and adenoidectomy. *Pediatrics* 1977;59:865–71.
- [16] Guilleminault C, Korobkin R, Winkle R. A review of 50 children with obstructive sleep apnea syndrome. *Lung* 1981;159:275–87.
- [17] Guilleminault C, Winkle R, Korobkin R, et al. Children and nocturnal snoring: evaluation of the effects of sleep related respiratory resistive load and daytime functioning. *Eur J Pediatr* 1982;139:165–71.
- [18] Lopes MC, Guilleminault C. Chronic snoring and sleep in children: demonstration of sleep disruption. *Pediatrics* 2006;118:e741–8.
- [19] Guilleminault C, Stoohs R, Clerk A, et al. A cause of excessive daytime sleepiness: the upper airway resistance syndrome. *Chest* 1993;104:781–7.
- [20] Guilleminault C, Partinen M, Praud JP, et al. Morphometric facial changes and obstructive sleep apnea in adolescents. *J Pediatr* 1989;114:997–9.
- [21] Tasker C, Crosby JH, Stradling JR. Evidence for persistence of upper airway narrowing during sleep, 12 years after adenotonsillectomy. *Arch Dis Child* 2002;86:34–7.
- [22] Guilleminault C, Pelayo R, Clerk A, et al. Home nasal continuous positive airway pressure in infants with sleep-disordered breathing. *J Pediatr* 1995;127:905–12.
- [23] Riley R, Powell N, Guilleminault C, et al. Maxillary, mandibular, and hyoid advancement: an alternative to tracheostomy in obstructive sleep apnea syndrome. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1986;94:589–93.
- [24] Guilleminault C, Akhtar F. Pediatric sleep-disordered-breathing: new evidences on its development. *Sleep Med Rev* 2015; 14:1–11.
- [25] Shiomi T, Guilleminault C, Stoohs R. Obstructed breathing during sleep and echocardiography in children. *Acta Paediatrica* 1993;82:863–71.
- [26] Guilleminault C, Khramtsov A, Stoohs RA, et al. Abnormal blood pressure in pre-pubertal children with sleep disordered breathing. *Pediatr Res* 2004;55:76–84.
- [27] Huang YS, Guilleminault C, Li HY, et al. Attention deficit/hyperactivity disorder with obstructive sleep apnea: a treatment outcome study. *Sleep Med* 2007;8:18–30.
- [28] Guilleminault C, Palombini L, Pelayo R, et al. Sleepwalking and sleep terrors in prepubertal children: what triggers them? *Pediatrics* 2003;111:e17–25.
- [29] Guilleminault C, Lee JH, Chan A, et al. Non-REM-sleep instability in recurrent sleepwalking in pre-pubertal children. *Sleep Med* 2005;6:515–21.
- [30] Huang YS, Guilleminault C, Hwang FM, et al. Inflammatory cytokines in pediatric obstructive sleep apnea. *Sleep Med* 2016;95:e4944.
- [31] Harvold EP, Tomer BS, Vargervik K, et al. Primate experiments on oral respiration. *Am J Orthod* 1981;79:359–72.
- [32] Miller AJ, Vargervik K, Chierici G. Experimentally induced neuromuscular changes during and after nasal airway obstruction. *Am J Orthod* 1984;85:385–92.
- [33] Vargervik K, Miller AJ, Chierici G, et al. Morphologic response to changes in neuromuscular patterns experimentally induced by altered modes of respiration. *Am J Orthod* 1984; 85:115–24.

- [34] Huang YS, Guilleminault C. Pediatric sleep apnea and the critical role of oral facial growth: evidences. *Front Neurol* 2013;3:184.
- [35] Pirelli P, Saponara M, Guilleminault C. Rapid maxillary expansion in children with obstructive sleep apnea. *Sleep* 2004;27:761–6.
- [36] Villa MP, Malagola C, Pagani J, et al. Rapid maxillary expansion in children with obstructive sleep apnea syndrome: 12 months follow-up. *Sleep Med* 2007;8:128–34.
- [37] Pirelli P, Saponara M, Guilleminault C. Rapid-maxillary expansion-RME – for pediatric obstructive sleep apnea: a 12 years follow-up study. *Sleep Med* 2015;16:933–5.
- [38] Guilleminault C, Huang YS, Monteyrol PJ, et al. Critical role of myofacial reeducation in sleep-disordered breathing. *Sleep Med* 2013;14:518–25.