

Kraków, dnia 31.12.2020

RECENZENT

Prof. dr hab. med. Jerzy Sułko

Wojewódzki Specjalistyczny Szpital Dziecięcy

Im. Św. Ludwika w Krakowie

Recenzja rozprawy na stopień doktora

mgr Pauliny Albińskiej

zatytułowanej

"Ocena poczucia jakości życia zależnej od stanu zdrowia dzieci i młodzieży z rozpoznaną wrodzoną łamliwością kości"

Przedstawiona do recenzji praca magister Pauliny Albińskiej jest monograficznym opracowaniem badającym jakość życia chorych z wrodzoną łamliwością kości /Osteogenesis Imperfecta – OI/ i porównującym tę jakość z odczuciami dzieci leczonych z powodu nieprawidłowości w zakresie gospodarki wapniowo-fosforanowej /NG Ca-P/.

Problem jakości życia stanowi ważny element oceny stanu zdrowia każdego człowieka. Zgodnie z definicją Światowej Organizacji Zdrowia (WHO): „zdrowie jest stanem pełnego dobrego samopoczucia fizycznego, psychicznego i społecznego, a nie tylko brakiem obiektywnie istniejącej choroby czy niepełnosprawności”.

Wgłębiając się w tę definicję można by zatem się zastanowić, czy będąc obciążonym chorobą lub niepełnosprawnością, mimo wszystko można być zadowolonym z życia, czy istnieje wtedy dodatnia jakość życia? W innym sensie – czy będąc niepełnosprawnym lub posiadającym jakąś chorobę – nasze życie ma jakość? I jaka jest ta jakość? Jak ją oceniać – i kto to powinien zrobić? I właśnie takie aspekty porusza omawiana dysertacja doktorska magister Pauliny Albińskiej.

Od pewnego czasu powstają prace naukowe oceniające i omawiające jakość życia pacjentów z różnymi chorobami. Niniejsza praca doktorska wpisuje się zatem we współczesne rozważania medyczne i psychologiczne. Jednak oceniając dzieci z genetyczną chorobą kości (choć oczywiście z punktu widzenia medycznego, także innych tkanek budowanych przez

kolagen typu I) jaką jest Osteogenesis Imperfecta /OI/, *aspekt jej nowości polega na ocenie jakości życia z uwzględnieniem perspektywy zarówno dziecka, jak i jego rodzica.*

Rozprawa doktorska powstała w jednym z największych i najważniejszych w Polsce ośrodków zajmujących się chorobami metabolicznymi kości – w Klinice Pediatrii, Patologii Noworodka i Chorób Metabolicznych Kości, stanowiącej część I Katedry Pediatrii Uniwersytetu Medycznego w Łodzi.

Praca powstawała pod kierunkiem promotora w Osobie prof. dr hab. med. Danuty Chlebnej-Sokół.

Uwagi ogólne dotyczące pracy doktorskiej

Praca liczy 275 stron formatu A-4. Układ pracy jest typowy dla prac doktorskich. Zawartość pracy stanowi zasadniczy tekst mieszczący się na stronach od 5 do 210.

Piśmiennictwo obejmuje strony od 211 do 258, przy czym ostanía strona to cytowana internetowe.

Streszczenie, nawiasem mówiąc dość rozbudowane, zamieszczono na końcu pracy.

A dodatkiem są cztery załączniki:

załącznik 1 przedstawia schematycznie wyznaczniki ogólnego poczucia jakości życia – brakuje tutaj perspektywy dziecka z OI;

załącznik 2 wymienia w kolejności tabele, a załącznik 3 listę rysunków, zawartych wcześniej w tekście pracy;

załącznik 4, najistotniejszy, to kwestionariusze autorskie obejmujące pytania skierowane do pacjenta i rodziny.

UWAGI ODNOSZĄCE SIĘ DO POSZCZEGÓLNYCH CZĘŚCI ROZPRAWY

Wstęp i rozdziały 1-2.

Po krótkim wstępie, pojawiają się dwa rozdziały: jakość życia w ujęciu interdyscyplinarnym oraz wrodzona łamliwość kości w perspektywie medyczno-psychologicznej. W rzeczywistości są one w całości rozbudowanym wstępem.

Przy czym rozdział pierwszy wprowadza nas w tematykę zakresu psychologii oraz jakości życia, definiując tę jakość według nauk społecznych i medycznych. Oddzielnie podkreślone jest znaczenie rodziny w życiu chorego dziecka. Nawet nie wglębiając się w temat, każdy rozumie, świadomie bądź intuicyjnie, jak ta rola jest ważna. Relacje w rodzinie dotyczą różnych aspektów życia i warto powtórzyć za autorką oraz innymi badaczami, że obecność

chorego członka rodziny nie pozostaje bez wpływu na pozostałych, stąd pojęcie „jakości życia rodzinnego”.

W tej części omówiono także definicję więzi i przywiązania, które można próbować rozdzielić w sensie znaczeniowym, ale autorka dysertacji świadomie stosuje je wymiennie i uzasadnia taką decyzję. Podstawą do tych rozważań jest koncepcja wychodząca z analiz Johna Bowlby, a omawiana i rozwijana także przez innych autorów. Istotne, wydaje mi się, jest przedstawienie w tym miejscu (rozdziale) stylów przywiązania, bowiem wyjaśniają pewne zachowania międzyludzkie.

Z kolei rozdział drugi, wprowadzający nas w tematykę pacjentów z konkretną chorobą, omawia wrodzoną łamliwość kości jako problem medyczny i psychologiczny. Najpierw przedstawiono informacje dotyczące tej wady genetycznej, łącznie ze sposobami współczesnych możliwości leczenia. A w kolejnym podrozdziale przeanalizowano literaturę dotyczącą aspektów psychologicznych u dzieci w wieku 8-18 lat z OI oraz ich rodziców.

Wydaje mi się, że omówione rozdziały 1-2 są zbyt rozbudowane, a szczególnie rozdział pierwszy rozpisany aż na 67 stronach (od strony 8 do 75). Doktorantka mogła spróbować napisać tę część bardziej syntetycznie.

Rozdział 3 - badania własne.

Rozdział 3 obejmuje badania własne autorki dysertacji doktorskiej. Ten rozdział został podzielony na następujące podrozdziały:

- Problematyka badawcza;
- Charakterystyka badanej populacji;
- Procedura badawcza i zastosowane narzędzia pomiaru;
- Wyniki badań;
- Omówienie wyników badań, podsumowanie i wnioski;
- Ograniczenia badań.

Problematyka badawcza to najogólniej ocena jakości życia chorych na OI oraz jakość życia rodzica pacjenta, typ wzajemnej relacji między opiekunami oraz podejście do dziecka czyli postawa rodzicielska.

Autorka zadała w tym miejscu osiem pytań badawczych – szczegółowo analizujących problematykę, ale też mających porównać elementy jakości życia dzieci z OI oraz NG Ca-P.

W swojej koncepcji pracy doktorantka zaprezentowała z kolei hipotezy badawcze, których wstępne uzasadnienie popierała koncepcjami publikowanymi w pracach naukowych innych autorów.

Charakterystyka badanej populacji to dane dotyczące badanej grupy pacjentów. Badaniem objęto 102 pary dziecko-rodzic. W całej ocenianej grupie znajdowało się 51 pacjentów z wrodzoną łamliwością kości /OI/ oraz 51 osób z nieprawidłowościami w gospodarce wapniowo-fosforanowej /NG Ca-P/. Dzieci uczestniczące w badaniu były w wieku 8-18 lat. Autorka przedstawiła dane socjodemograficzne badanych osób.

Procedura badawcza i zastosowane narzędzia pomiaru to, mówiąc prosto, metodyka badania. Uzyskano grupy badawcze. Następnie przeprowadzono badanie psychologiczne wszystkich uczestniczących w badaniu. W dalszej kolejności wszyscy uczestnicy – dzieci i rodzice – wypełnili autorski kwestionariusz przygotowany na potrzeby badania: „ocena stanu psycho-socjoekonomicznego” oraz kwestionariusz do badania jakości życia KIDSCREEN-52. Ponadto rodzice uzupełniali dodatkowe kwestionariusze służące później do oceny psychologicznych komponent życia rodzinnego. Wszystkie wspomniane kwestionariusze zostały szczegółowo opisane w tekście tego podrozdziału.

Warte podkreślenia jest staranność przeprowadzonych badań składających się zarówno z rozmów przeprowadzonych przez autorkę badania z uczestnikami, jak i wnikliwych kwestionariuszy. W tym miejscu trzeba też docenić chęć dzieci i rodziców do uczestniczenia w tym badaniu oraz czas przez nich poświęcony na rozmowy z psychologiem i wypełnienia tych ankiet.

Końcowym elementem była analiza uzyskanych danych, również statystyczna.

Kolejny podrozdział to wyniki badań, które przedstawiono na stronach 153-179. A w następnej części omówiono wyniki tych badań, przeprowadzono podsumowanie i wyciągnięto wnioski.

Na koniec prezentowanej dysertacji doktorskiej, autorka przedstawia wnioski, które odpowiadają na pytania zadane wcześniej, w podrozdziale „problematyka badawcza”. Nie ma potrzeby cytowania tutaj kolejnych wniosków, bo byłoby to powtarzaniem rozdziału z pracy doktorskiej. Jednak pragnę zwrócić uwagę na rzeczy istotne i może nieraz odbiegające od popularnego myślenia czy obserwacji osób niepełnosprawnych przez osoby zdrowe.

Otóż praca doktorska udowodniła, że w grupie dzieci z OI występują częściej i w większym nasileniu dolegliwości bólowe – w porównaniu do chorych z NG Ca-P. Zadziwiające w tym kontekście jest, że badania nie udowodniły wpływu bólu na jakość życia uwarunkowaną stanem zdrowia dzieci z OI. Próba wytłumaczenia to psychologiczna strategia obronna, ale dalsze badania w tej kwestii mogą być interesujące.

Rodzice dzieci z OI oraz NG Ca-P nie różnią się stylem przywiązania w relacjach partnerskich. W obu grupach istnieje wysoki poziom w stylu bezpiecznym, przy niskim nasileniu stylu lękowo-ambiwalentnego. Badania wykazały u badanych występujące wysokie poczucie bezpieczeństwa we wzajemnych relacjach rodziców dzieci i wzajemne zaufanie. To rezultaty odmienne od doniesień innych autorów, wykazujących wysoki poziom stresu związanego z wychowaniem dziecka chorego. To bardzo ciekawe obserwacje dotyczące, także moich pacjentów z OI i ich rodziców.

Inna hipoteza badawcza (nr 5) potwierdziła z kolei, zasadniczo logiczne obserwacje, że w porównaniu z grupą kontrolną, dzieci z OI gorzej funkcjonują w zakresie zdrowia fizycznego i aktywności.

Ciekawa jest także obserwacja obejmująca hipotezę 8: czynniki związane z objawami klinicznymi OI, przede wszystkim złamanie i ból, nie stanowią wyznaczników jakości życia ani w percepcji samych dzieci, ani rodziców. Jest to zgodne z innymi autorskimi obserwacjami, że dzieci z OI, przy całościowej ocenie stosunku do swojego życia i poziomu funkcjonowania, mało koncentrują się na objawach swojej choroby.

Ciekawe też, że według rodziców czynnikami znacznie wpływającymi na jakość życia ich dziecka jest poziom adaptacji do szkoły – lepszy poziom adaptacji, to wyższa jakość życia oraz liczba złamań – wyższa liczba obniża jakość życia. Ze swojej strony dodam, że nawet ta ostatnia informacja potwierdza, że warto leczyć dzieci z OI, zarówno farmakologicznie, jak i operacyjnie.

Ostatnim podrozdziałem, już nieco poza istotą przeprowadzonych badań, jest informacja odautorska krytycznie spoglądająca na ograniczenia przedstawionych badań.

Kończącą częścią pracy jest bibliografia, streszczenie oraz załączniki - w tym ważne z punktu widzenia metodyki pracy - kwestionariusze.

Mam spore zarzuty wobec sposobu prezentacji bibliografii – zarówno w tekście dysertacji, jak i w spisie publikacji. Od lat przyjęta jest bowiem zasada podawania piśmiennictwa w tekście pracy, w formie numeracji pojawiającej się według kolejności cytowania, na końcu odpowiedniego zdania. W tej samej kolejności liczbowej wymieniane są na końcu pracy kolejne publikacje. Myślę, że ułatwia to odszukiwanie cytowanych prac i jest bardziej przejrzyste, a przede wszystkim powszechnie przyjęte jako zasada cytowania. Sposób cytowania prezentowany przez autorkę dysertacji doktorskiej nie jest mi obcy, bo nawet ostatnio miałem okazję spotkać się z podobną formą w ciekawej, uniwersyteckiej publikacji polonistycznej, jednak moim zdaniem lepsze byłoby zastosowanie ogólnie przyjętych zasad cytowania według numeracji. Ponadto, mając podany spis publikacji, nie wiemy jaka

konkretnie ilość prac była cytowana – chyba, że policzymy sami. Policzyłem cytowania, które mieszczą się na stronach od 211 do 258. Jeśli się nie pomyliłem w liczeniu, to jest ich 579 – zarówno artykułów, wystąpień zjazdowych, jak i rozdziałów z podręczników. Dodatkowo podanych jest 9 pozycji internetowych. Sądzę, że rolą autora jest decyzja dobrania jednych cytowań i pominięcia innych, oczywiście nie z intencją doboru tylko tych prac, które potwierdzają własne założenia. Jednak wybór należy uczynić – zarzutem z mojej strony jest nadmierna ilość cytowań.

To uwagi krytyczne, ale samo cytowane piśmiennictwo jest dobrane prawidłowo i z pewnością potwierdza szeroką znajomość tematyki przez doktorantkę.

Rolą recenzenta jest również ocena języka pracy doktorskiej. Znajduję tutaj drobne błędy, które wprawdzie nie rzutują na ocenę merytoryczną tej pracy, ale zwrócenie uwagi na nie, jest jednym z aspektów dbania o język polski – także w pracach naukowych.

Podam tylko przykłady, nie wymieniając wszystkich znalezionych przeze mnie błędów, na szczęście głównie literowych.

Błędy literowe: str. 32 - wers 4: opiekunów; str. 33-wers 20: literatury; str.61-wers 5 od dołu strony: „styl więzi ...unikającej”; str. 62-wers 9: uwzględnili; str. 64 wers 1 : wiezi; str. 76-wersy 10,19,25 (literatura, dziewczynka, niezależnie). Strona 77-wers 23 (prezentowane); str. 81-wers 24; str. 84-wers 7; str. 94-wers 4 (zaskoczeniem); str. 95-wers 5 od dołu (narodzinami); str. 96-wers 10 (opiekunów); str. 99-wers 21 (wyzwan); str. 100-wers 8 od dołu (jednocześnie); str. 180 – wers 8 (korzeniami) i wers 3 od dołu (hipoteza); str. 182-wers 7 od dołu (kategoriach); str. 260 – wers 5 (KIDSCREEN).

Błąd w nazewnictwie – tym bardziej, że to ważny szpital - str. 91-wers 6 od dołu: powinno być: Shriners Hospital.

PODSUMOWANIE RECENZJI

Jeśli chodzi o merytoryczną ocenę rozprawy doktorskiej to należy podkreślić wkład wniesiony przez Jej autorkę w przeprowadzone wnikliwie badania i szczegółową analizę poszczególnych elementów. Praca przedstawia cenne obserwacje psychologiczne. Jest napisana w sposób poprawny, odpowiadający wymaganiom stawianym tego typu tekstom naukowym. Istotny aspekt nowości wniesiony przez doktorantkę polega na ocenie jakości życia z uwzględnieniem perspektywy zarówno dziecka, jak i jego rodzica. A także na porównaniu dwóch grup chorych pod względem oceny tej jakości.

Strukturę pracy należy uznać za poprawną, zaś układ treściowy za logiczny. Literatura źródłowa, została dobrana prawidłowo, a jej cytowanie należy uznać za właściwe.

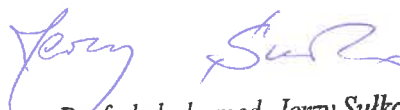
Krytyczne uwagi zamieszczone powyżej oraz wychwycone błędy, głównie literowe, nie obniżają wartości samej pracy doktorskiej.

Ta praca wzbudziła także moje zainteresowanie z punktu widzenia praktycznego, czy też inaczej mówiąc życiowego. Obserwacje autorki, na podstawie badań obejmujących zarówno dzieci, jak ich rodziców, dzieci z wrodzoną chorobą, z którą trzeba iść przez życie, pokazują, że mimo obciążenia taką chorobą, to życie ma wartość i jest oceniane pozytywnie. To potwierdza moje, wieloletnie obserwacje, że człowiek z obecną chorobą, w jakiejś mierze ograniczającą chociażby aktywność i możliwości funkcjonowania codziennego, może być i jest zwykle w tym życiu szczęśliwym i jakoś swojego życia potrafi cenić.

Recenzowana praca jest samodzielnym i oryginalnym przedstawieniem oraz rozwiązaniem problemu naukowego. Doktorantka wykazała się też odpowiednią ogólną wiedzą teoretyczną w prezentowanym przez Nią zakresie naukowym.

Podsumowując stwierdzam, że przedstawiona do recenzji praca mgr Pauliny Albińskiej pod tytułem „Ocena poczucia jakości życia zależnej od stanu zdrowia dzieci i młodzieży z rozpoznaną wrodzoną łamliwością kości” spełnia warunki odpowiadające rozprawie na stopień doktorski. Zwracam się do Rady Nauk Medycznych Uniwersytetu Medycznego w Łodzi o dopuszczenie autorki recenzowanej pracy, mgr Pauliny Albińskiej, do dalszych etapów procedury przewodu na stopień doktora.

Jerzy Sułko



Prof. dr hab. med. Jerzy Sułko
specjalista ortopeda-traumatolog
tel. 603-648-135
8963662