

dr hab. Aneta R. Borkowska, prof. UMCS

05.10.2015

Instytut Psychologii UMCS,

Lublin

Recenzja rozprawy doktorskiej Pani **mgr Agnieszki Ondruch** pt.

„Mózgowa reprezentacja mowy i sprawności werbalne u dzieci z półkulowymi ogniskowymi lezjami ośrodkowego układu nerwowego. Badania z wykorzystaniem funkcjonalnego rezonansu magnetycznego”

napisanej pod kierunkiem **dr hab. Agnieszki Maryniak, prof. UW**

Recenzowana praca doktorska jest rozprawą naukową o charakterze klinicznym, będącą efektem pracy Doktorantki na Oddziale Neurochirurgii Instytutu „Pomnik-Centrum Zdrowia Dziecka”.

Temat pracy, czyli sprawności językowe dzieci z różną etiologicznie i lokalizacyjnie patologią ośrodkowego układu nerwowego, jest niezwykle istotny z perspektywy praktyki klinicznej, zwłaszcza na dziecięcych oddziałach neurochirurgii. Dlatego podjęcie tego zagadnienia, z pewnością trudnego w realizacji, wymagającego bardzo dużego wkładu pracy i zaangażowania (same badania trwały 4 lata), należy ocenić bardzo wysoko. Każda operacja neurochirurgiczna obarczona jest ryzykiem uszkodzenia struktur istotnych dla realizacji procesów psychicznych. Język, ze względu na jego ogromne znaczenie dla całokształtu dalszego rozwoju, jest funkcją szczególnie koncentrującą uwagę specjalistów pracujących z dziećmi oczekującymi na operację. Ten właśnie proces był przedmiotem analiz w recenzowanej pracy.

Struktura ocenianej rozprawy doktorskiej jest typowa dla prac empirycznych, składa się z części wprowadzenia teoretycznego (trzy pierwsze rozdziały) oraz części empirycznej

(dwa rozdziały), poza tym w pracy znajdują się streszczenie, wstęp, dyskusja i wnioski. Jej objętość (109 stron) jest przyjazna dla recenzenta.

We wstępie zaprezentowany został cel badań w następujących słowach: "Celem niniejszej pracy jest analiza zaburzeń funkcji werbalnych występujących u dzieci z ogniskowymi zmianami półkulowymi o.u.n., w odniesieniu do uzyskanych w badaniu czynnościowym informacji o mózgowej reprezentacji mowy"(s. 5). W tak sformułowanym zdaniu zabrakło mi wyraźnego wskazania owego „celu”, zatem po co analizowano zaburzenia funkcji werbalnych określonej grupy dzieci w odniesieniu do uzyskanych w badaniu czynnościowym informacji o mózgowej reprezentacji mowy. Szczególnie istotne byłoby wyraźne zaprezentowanie intencji i podkreślenie znaczenia uzyskanej wiedzy dla praktyki klinicznej, zwłaszcza dla rozumienia mechanizmów zmian plastycznych zachodzących w mózgowiu dzieci z guzami. Wciąż bowiem, niezależnie od relatywnie bogatej literatury przedmiotu, objawy zaburzeń werbalnych u dzieci z lewopółkulowymi zmianami patologicznymi bywają nieprawidłowo interpretowane. Wnioskuje się w takich przypadkach o istnieniu afazji, podczas gdy trudności językowe mogą być wynikiem zjawiska wcześniejszego transferu funkcji językowych do innych (np. homologicznych) okolic OUN w przeciwległej półkuli. A to ma istotne znaczenie dla planowania drogi dostępu operacyjnego.

Rozdziały teoretyczne to: rozdział 3 zatytułowany „Lateralizacja”, rozdział 4 „Plastyczność mózgu” i rozdział 5 „Funkcjonalny rezonans magnetyczny”. Łącznie część teoretyczna obejmuje 54 strony. Zawartość merytoryczna tej części rozprawy jest zgodna z nadrzędną ideą całej pracy, choć mam wrażenie, że tytuły rozdziałów są zbyt enigmatyczne i nie pokazują związku z tytułem pracy, z wyjątkiem ostatniego.

W rozdziale poświęconym zjawisku lateralizacji, mgr Ondruch w pogłębiony sposób omawia koncepcje i badania nad zagadnieniem asymetrii stronnej w odniesieniu do asymetrii stron ciała, w tym do ręczności (co w części empirycznej ma bezpośrednie przełożenie na przeprowadzone analizy), analizuje aspekt rozwojowy kształtowania się tej cechy, a szczególną uwagę poświęciła asymetrii funkcjonalnej mózgowia. Ważnym z perspektywy badań własnych, jest podpunkt na temat mózgowej reprezentacji mowy po wczesnych uszkodzeniach OUN. W kolejnym rozdziale, w którym Doktorantka omawia procesy plastyczności mózgu, wyjątkowo ważnym jest punkt o plastyczności kompensacyjnej, która obserwowana jest w mózgach pacjentów po wczesnych uszkodzeniach OUN. Szczególnie

chcę podkreślić wysokie walory rozdziału poświęconego funkcjonalnemu rezonansowi magnetycznemu i jego znaczeniu w diagnostyce klinicznej. Zawartość merytoryczna części teoretycznej oraz sposób zaprezentowania wiedzy świadczy o wysokich kompetencjach poznawczych i dużej wnikliwości Autorki. Prezentując i analizując prowadzone na świecie badania w interesującym ją obszarze, wykazuje się umiejętnością wyboru adekwatnych prac jako ilustracji omawianych zagadnień. Owa znajomość literatury przedmiotu jest także widoczna w dyskusji wyników, gdy swoje interpretacje konfrontuje z dobrze dobranym piśmiennictwem.

Jednakże w odniesieniu do części teoretycznej mam kilka uwag natury ogólnej. Jest napisana głównie w oparciu o literaturę tzw. klasyczną czyli publikacje wydane przed lub w ciągu kilku lat po roku 2000. Najnowsze referencje odnoszą się do prac z 2011 roku i na 8 stron spisu cytowanej literatury (ok. 140 pozycji) jest ich tylko 6. Przy tak dobranej literaturze nie dziwnego, że nie zawsze Autorka miała możliwość dotarcia do prac źródłowych, co spowodowało, że w treści jest zbyt dużo powołań na literaturę za innym autorem niż oryginalny. Podobnie, tak dobrana literatura ma bezpośrednie przełożenie na treść merytoryczną rozprawy i powoduje, że Autorka przytacza badania i wnioski z nich wynikające, które w świetle aktualnej wiedzy mają znaczenie już tylko historyczne. Muszę podkreślić, że Doktorantka ma pełną świadomość braku aktualności przytaczanych sformułowań, czemu dała wyraz, przykładowo na s. 27, w zdaniu „... założenie to ma więc raczej charakter historyczny i nie jest już uprawomocnione”. Takich badań o historycznym znaczeniu, w części teoretycznej rozprawy opisanych jest wiele. Może należało zatytułować rozdziały „Ewolucja poglądów na temat...” wówczas treść byłaby adekwatna do także historycznego ujęcia zagadnień.

Mając pełen szacunek do klasyków i ich prac, sędzę, że w rozprawie doktorskiej wskazane byłoby skoncentrowanie się już nie na opisie eksperymentów i ich wyników, ale na ich syntezie, krytycznej dyskusji i podsumowaniu, jaki jest stan wiedzy na temat mózgowej reprezentacji mowy w rozwijającym się mózgowiu dziecka, kształtowaniu się asymetrii funkcjonalnej i procesów dziejących się w przypadkach pojawienia się patologii. Najbardziej zabrakło mi w części teoretycznej podsumowań, konkluzji w dwu głównych obszarach: 1/wiedzy potwierdzonej, czyli w jakich zakresach badacze doszli do porozumienia, co nie wymaga już dalszej eksploracji empirycznej 2/ obszarów kontrowersji, wciąż aktualnych pytań i wątpliwości. Ten fakt z kolei, powoduje, że część teoretyczna nie jest wystarczająco

przekonująca jako uzasadnienie podjęcia badań zaprezentowanych w części empirycznej. Nie znalazłam bowiem podsumowania, którego treść wskazywałaby na luki, kontrowersje w odniesieniu do różnych aspektów wiedzy, a które to kontrowersje mogłyby zostać wyjaśnione, lub też wyniki mogłyby być udziałem w dyskusji nad określonymi zagadnieniami. Ma też drobną uwagę szczegółową: na s. 3 oraz w kilku innych miejscach pracy (np. s 52) Doktorantka używa słowa „ośrodek” w odniesieniu do podłoża neuronalnego procesów psychicznych np. Badanie z użyciem fMRI pozwalające na „... wyznaczenie mózgowych ośrodków określonych sprawności poznawczych..”. Określenie „mózgowe ośrodki określonych sprawności poznawczych” jest nieco archaiczne i zbyt sugerujące przywiązanie autora do wąskolokalizacyjnej koncepcji pracy mózgu. Jestem przekonana, iż Doktorantka ma pełną wiedzę i świadomość aktualnych poglądów na pracę mózgowia na rzecz realizacji procesów psychicznych, zatem traktuję to jako pewien skrót myślowy, choć chyba niefortunny.

Część empiryczna dysertacji (39 stron) raportuje doświadczenia kliniczne autorki. Treść tej części wyraźnie pokazuje, że Doktorantka ma bogate praktyczne doświadczenie kliniczne, prowadzi badania neuropsychologiczne dzieci przygotowywanych do operacji neurochirurgicznych, a swoją pracę wykonuje profesjonalnie i odpowiedzialnie. Kliniczny charakter pracy wyraża się w specyfice badanej grupy (dzieci w różnym wieku, w różną lokalizacją i etiologią zmian mózgowych), braku grupy kontrolnej, głównie jakościowym charakterze analiz danych z badań dzieci, oraz w tym, że wyniki poddane zostały bardzo podstawowym porównaniom statystycznym (Chi kwadrat).

Osobami badanymi były dzieci – 23 pacjentów oddziału Neurochirurgii, przygotowywane do operacji neurochirurgicznych z powodu rozpoznania zmiany patologicznej w OUN. Wskazaniem do badań była lokalizacja zmiany, stwarzająca niebezpieczeństwo wystąpienia zaburzeń w zakresie funkcji werbalnych w czasie lub/i po operacji. Prawidłowo został wybrany wiek dzieci (nie mniej niż 8 lat), ze względu na potencjalne trudności przeprowadzenia badania fMRI z udziałem dzieci młodszych. Metody badań i procedura są w pełni poprawne. Uzasadnione i zrozumiałe jest zredukowanie badania neuropsychologicznego do kilku metod, ze względu na ochronę chorego dziecka. To świadczy o wrażliwości i profesjonalizmie Doktorantki.

W punkcie 6.1. Autorka stwierdza, że badania mają charakter eksploracyjny. Nie wiem, jak Autorka rozumie to pojęcie. W moim przekonaniu badania eksploracyjne mają miejsce wówczas, gdy nie ma w literaturze żadnych danych na dany temat, a problematyka jest nowa i nieznana. W przypadku podejmowanego w pracy tematu tak jednak nie jest, co jest widoczne w części teoretycznej. Zatem z pewnością są to badania kliniczne, ale nie eksploracyjne, z udziałem relatywnie małej grupy dzieci o dość zróżnicowanej lokalizacji, rozległości i etiologii zmian patologicznych w mózgowiu.

Bardzo doceniam kliniczny charakter recenzowanej pracy. W neuropsychologii dziecka zbieranie danych klinicznych pozwalających, często dopiero w odległej przyszłości na formułowanie generalnych wniosków, jest żmudne i długotrwałe. Dlatego materiał z badań dzieci, zwykle zróżnicowanych pod względem stanu ośrodkowego układu nerwowego jest cenny. Fakt zaprezentowania w niniejszej rozprawie obrazu deficytów dzieci z dobrze opisanymi lezjami półkulowym, jest jej dużą wartością.

Z obowiązku recenzenta muszę wskazać także na pewne niedociągnięcia, które pojawiły się w części empirycznej. Jeśli Doktorantka widzi potrzebę formułowania hipotez, powinny być one krótko, ale precyzyjnie uzasadnione na podstawie literatury. W aktualniejszej wersji pracy, przy braku podsumowań i konkluzji teoretycznych trudno o poczucie, że Autorka wie dlaczego stawia taką, a nie inną hipotezę.

W opisie metod (s. 68) znalazłam pewną niezręczność, mianowicie stwierdzono że oceniano lateralizację ręki, oka, nogi za pomocą (m.in.) następujących prób: występowanie leworęczności w rodzinie, tendencja do leworęczności we wczesnym dzieciństwie – to nie są próby, tylko inne metody zbierania danych o ręczności dziecka.

Mam niedosyt odnoszący się do jakości prezentacji wyników. Jest ona bardzo uboga mimo, że materiał uzyskany w badaniach neuropsychologicznych był bogaty (wnioskuję z opisu metod). Nie rozumiem, dlaczego w opisie wyników znajdują się tylko kategoryzacje jakościowe. W zasadzie każda użyta metoda mogła zostać pokazana w sposób ilościowy, a nie została. W pierwszym punkcie opisu wyników znajdujemy efekty badania mowy, zatytułowane „Zaburzenia mowy”. Ten punkt zawiera jedynie wykres wskazujący ilu pacjentów wykazywało wyróżnione kategorie zaburzeń mowy. Nie ma natomiast informacji, jakie wyniki uzyskali pacjenci. Jestem przekonana, że praca znacznie zyskałaby, gdyby znalazły się w niej prezentacje konkretnych wyników osób badanych w precyzyjnie

określonych zadaniach. Np. w zaburzeniach syntaktyki: ile zdań dzieci musiały ocenić i ile oceniły poprawnie, ile popełniły błędów, jaka liczba błędów była graniczną dla diagnozy zaburzeń syntaktyki u dziecka. W zadaniu fluencji werbalnej- ile słów dzieci wygenerowały?, co to znaczy obniżona fluencja słowna? I tak dalej. Autorka zastosowała wiele miar np. Test Pamięci Wzrokowej Bentona - ale wyników w pracy nie zamieściła. Podobnie nie ma wyników testu 15 słów Rey'a, Testu Figury Złożonej Rey'a, wyników powtarzania sylab i słów, nazywania i syntaktyki. Nie pojawia się informacja, jak Autorka definiuje „trudności werbalne”, w ilu sferach dzieci musiały wykazać zakłócenia, aby zaliczyć je do grupy z trudnościami werbalnymi, wystarczyło stwierdzenie występowania problemów w jednej próbie, a może we wszystkich?

Bardzo też żałuję, że nie zostały bardziej szczegółowo przedstawione wyniki fMRI.

Doktorantka pokazywała trudności werbalne w kontekście lokalizacji zmiany patologicznej. Tego typu informacje zawiera tabela IV. Jednakże mam problem ze zrozumieniem jej treści: otóż są trzy grupy dzieci: ze zmianą w półkuli dominującej dla mowy, ze zmianą w półkuli niedominującej dla mowy i grupa dzieci z bilateralną reprezentacją mowy. Ale w tej trzeciej grupie nie jest podane, gdzie znajduje się zmiana patologiczna, w obu półkulach?

To co jest niewątpliwie bardzo ciekawym oraz ważnym z perspektywy klinicznej wynikiem, to pokazanie zależności pomiędzy występowaniem trudności werbalnych a złośliwym charakterem zmian patologicznych u dzieci. Niestety ograniczeniem wartości tego wyniku jest brak istotności statystycznej uzyskanych obserwacji. Autorka skomentowała ten fakt w sposób następujący: „Ze względu na małe liczebności grup, różnica ta nie jest istotna statystycznie”. Wydaje się, że taki wniosek jest nie do końca uprawniony. Analizowane zależności po prostu mogą nie być istotne, niezależnie od liczebności grup. Nie można spekulować, że gdyby było inaczej, to wyniki byłyby inne.

Mam też pewną wątpliwość dotyczącą treści omówienia wyników w punkcie 7.3. Otóż na podstawie uzyskanych wyników Autorka wnioskuje, iż niemożliwe jest orzekanie o dominacji półkulowej dla mowy na podstawie danych neuropsychologicznych. Mam wrażenie, że takie stwierdzenie jest zbyt oczywiste, wiedza na ten temat gromadzona od lat pokazuje, jak zróżnicowane są mechanizmy plastyczności w dziecięcym mózgu, które mogą prowadzić do różnych efektów w funkcjonowaniu na rzecz komunikacji językowej. Z

pewnością, na podstawie danych z badań neuropsychologicznych możemy jedynie stwierdzić, które z aspektów mowy są zaburzone, które zachowane ale nie możemy twierdzić, które okolice mózgowia były wówczas aktywne. Jeśli jednak, z doświadczenia klinicznego Doktorantki wynika przekonanie o konieczności podkreślenia faktu, iż w przypadkach konieczności precyzyjnej lokalizacji półkulowej dominacji dla funkcji językowych, niezbędne są wyniki badań neuroobrazowych, w pełni rozumiem i akceptuję jej intencje.

Dyskusja wyników została napisana z zachowaniem wszelkich zasad formułowania tej części pracy naukowej, z odniesieniami do piśmiennictwa i formułowaniem własnych interpretacji. Stanowi ona mocną stronę recenzowanej dysertacji. Z widoczną znajomością literatury i swobodą poruszania się wśród dostępnych danych w piśmiennictwie, Doktorantka dyskutuje i interpretuje uzyskane przez siebie wyniki. Mam tylko jedną uwagę: w dyskusji jest fragment poświęcony badaniom znaczenia prawej półkuli mózgu dla realizacji zadań językowych, także w grupie osób dorosłych. Widziałabym potrzebę wskazania w tym miejscu prac Pani prof. Emilii Łojek.

To, co jest najbardziej wartościowe w recenzowanej pracy to zestawienie rodzaju trudności językowych z występowaniem określonej lokalizacji aktywnych okolic w zadaniach językowych i rodzaju patologii mózkowej. Ten rodzaj wniosków wydaje mi się najciekawszy i wnoszący wiele do poszerzenia wiedzy na temat procesów zachodzących w mózgowiu dziecka ze zmianą o różnym charakterze. Oczywiście, biorąc pod uwagę charakterystykę grupy i wynikającą z niej trudność wykorzystania analiz statystycznych, konieczne jest zachowanie ostrożności w ich generalizowaniu. Pomimo tego, jestem przekonana o ich ogromnym znaczeniu dla praktyki klinicznej.

Podsumowanie

Po szczegółowym zapoznaniu się z treścią dysertacji, przeanalizowaniu jej wyraźnych walorów oraz fragmentów słabszych, wyrażam opinię, że spełnia ona ustawowe wymagania stawiane rozprawom doktorskim (art.31 ustawy z dnia 14 marca 2003 o tytule i stopniach naukowych – Dz.U. Nr 65 poz.595), zatem stanowi podstawę dla wniosku o jej przyjęcie i o dopuszczenie Pani mgr Agnieszki Ondruch do dalszych etapów przewodu doktorskiego.

