

Dr hab. Aneta R. Borkowska prof. UMCS

Lublin 2021-01-10

Katedra Psychologii Klinicznej i Neuropsychologii

Instytut Psychologii UMCS

**Recenzja rozprawy doktorskiej mgr Agnieszki Rojczyk pt. Torbiele
pajęczynówki u dzieci – czy mają wpływ na rozwój języka i innych funkcji
poznawczych
napisanej pod kierunkiem promotorki, dr hab. Agnieszki Maryniak, prof.**

UW

Poddana recenzji dysertacja tematycznie lokuje się na granicy neuropsychologii, psychologii klinicznej, psychologii rozwoju i medycyny. Głównymi analizowanymi zmiennymi wyjaśnianymi są zmienne psychologiczne, czyli procesy poznawcze, w tym procesy językowe. Zmiennymi wyjaśniającymi są czynniki o charakterze biologicznym - obecność malformacji mózgowych w postaci torbieli pajęczynówki. Wybór tematu i grupy badanych dzieci jest bez wątpienia atutem recenzowanej pracy, ponieważ badań konsekwencji rozwojowych torbieli pajęczynówki jest niewiele, a są one uważane za jedne z najczęściej wykrywanych malformacji wewnątrzczaszkowych.

Tytuł pracy poprawnie odzwierciedla jej zawartość merytoryczną.

Praca składa się ze streszczenia w języku polskim i angielskim, wstępu, części teoretycznej oznaczonej jako przegląd literatury (trzy rozdziały), części empirycznej oznaczonej jako badania własne (pięć rozdziałów), bibliografii oraz aneksu. Ten materiał obejmuje 125 stron, z czego 13 stron zajmuje spis wykorzystanej literatury. Struktura pracy jest poprawna, układ treści, kolejność rozdziałów nie budzi zastrzeżeń.

Ocena części teoretycznej

Rozdział pierwszy poświęcony został charakterystyce torbieli pajęczynówki. To bardzo profesjonalnie napisany rozdział, Autorka precyzyjnie definiuje oraz pokazuje klasyfikacje tego typu malformacji rozwojowych ilustrując je zdjęciami z rezonansu magnetycznego (szkoda, że nie zostało wskazane pochodzenie tych zdjęć, można

przypuszczać, iż są to pacjenci Centrum Zdrowia Dziecka, ale warto byłoby, z punktu widzenia etyki badań naukowych podkreślić, że nie było przeciwwskazań umieszczenia ich w pracy). Bardzo ciekawy podpunkt poświęcony objawom, często subtelnym i nie związanym z chorobą neurologiczną. Ważne, iż Autorka podkreśliła problemy psychologiczne chorych, którzy uzyskując wiedzę o obecności zmiany, nie są kwalifikowani do leczenia, a jedynie do obserwacji. Okazuje się, że osoby te mają istotnie niższą jakość życia i podwyższony poziom lęku. Rozdział kończy opis możliwych i stosowanych form leczenia.

Rozdział drugi zatytułowany został *Neuroplastyczność*. Prezentacja tematyki neuroplastyczności w pracy poświęconej skutkom rozwojowym zmian mózgowych jest bardzo uzasadniona ponieważ dynamika rozwoju mózgowia w wymiarze strukturalnym i funkcjonalnym determinuje lub warunkuje odmienność obrazu klinicznego pacjentów w wieku rozwojowym i pacjentów dorosłych. W rozdziale czytelnik odnajdzie zarówno definicje zjawiska jak i charakterystykę rodzajów neuroplastyczności, w kontekście uwarunkowań jej ujawniania się.

Rozdział trzeci poświęcono wczesnym uszkodzeniom mózgu. W jego pierwszej części Autorka wskazała na złożoność uwarunkowań konsekwencji wczesnych uszkodzeń mózgu, podkreślając wciąż aktualne spory i brak konkluzywności badań w odniesieniu do zjawiska ekwipotencjalności, plastyczności, wrażliwości i specjalizacji funkcjonalnej rozwijającego się mózgowia. W drugiej części rozdziału znajdujemy omówienie bogatego materiału z badań nad rozwojem poznawczym pacjentów po wczesnych uszkodzeniach mózgu, a w trzeciej, szczególnie interesujące z perspektywy tematu pracy i badań własnych Autorki, opis i analizę danych na temat rozwoju poznawczego osób z torbielami pajęczynówki.

Moja ogólna ocena tego fragmentu pracy jest bardzo pozytywna. Doktorantka udowadnia w niej wysokie kompetencje merytoryczne i świetną orientację w literaturze współczesnej oraz tej, w większym stopniu klasycznej, a nawet historycznej. Chcę podkreślić moją aprobatę dla wyboru i przytaczania nie tylko publikacji z XXI wieku, ale także wyników badań sprzed kilkudziesięciu lat. Prace te mają znaczenie dla zrozumienia ciągłości rozwoju nauki. Zastanawia mnie jedynie, czy rzeczywiście Doktorantka dotarła do oryginałów wielu prac klasycznych, z lat 60., 70. ubiegłego wieku, a nawet jednej pracy z 1877 roku (Barlow). Całość wprowadzenia teoretycznego jest dobrym tłem dla badań własnych nad rozwojem poznawczym, w tym językowym u dzieci z torbielami pajęczynówki.

W tej części pracy, na s.51 pojawiała się pewna niezręczność językowa „...stwierdzono pooperacyjny przyrost nazywanych obrazków...”

Ocena części empirycznej

W opisie koncepcji projektu badawczego podjęcie owej problematyki zostało poprawnie uzasadnione. Konkluzje płynące z przeglądu badań sugerowały konieczność dalszych prac w zakresie rozwoju poznawczego, szczególnie w grupie dzieci i młodzieży (istnieje więcej badań nad dorosłymi), oraz szczególnie w grupie pacjentów z grupy nie leczonej/przed leczeniem chirurgicznym (istnieje więcej badań nad skutecznością leczenia operacyjnego), zatem z możliwością ustalenia wpływu tej malformacji na jakość rozwoju. Koncentracja i zwrócenie szczególnej uwagi na rozwój językowy prawidłowo uzasadniony jest, między innymi, głównie lewopółkulową lokalizacją torbieli pajęczynówki.

W pracy zostało postawionych sześć pytań badawczych. Do sformułowania pytań mam kilka uwag, zwłaszcza w kontekście postawionych hipotez. Przedstawione pytania mają charakter równoległy, natomiast z ich treści wynika, że jedno pytanie wydają się uszczegółowieniem drugich. Sądzę, że pytanie 1 *Jaki jest poziom rozwoju poznawczego, ze szczególnym uwzględnieniem rozwoju językowego, dzieci i młodzieży, u których zdiagnozowano wrodzoną torbiel pajęczynówki w obrębie półkul mózgu?* ma bardzo ogólny charakter ponieważ zawiera w sobie nawiązanie do poziomu funkcjonowania poznawczego i do lokalizacji torbieli. Zatem pytanie 2 *Czy lokalizacja torbieli w lewej lub prawej półkuli wiąże się z funkcjonowaniem językowym?*, pytanie 3 *Jaka jest specyfika funkcjonowania językowego pacjentów z torbielami w zależności od jej umiejscowienia w lewej lub prawej półkuli mózgu?* oraz pytanie 5 *czy występują różnice w wynikach uzyskiwanych w teście inteligencji pomiędzy pacjentami z torbielami prawo- i lewostronnymi?* są uszczegółowieniem pytania 1, a nie są pytaniami równoważnymi.

Hipoteza 2 i 3 są komplementarne i mogły stanowić jedną, hipoteza 2 zakłada, że deficyty w przypadkach torbieli lewopółkulowych będą głębsze niż prawopółkulowych, a hipoteza 3 uszczegóławia to założenia i wskazuje na zróżnicowanie także jakościowe tych deficytów. Nie rozumiem dlaczego nie została sformułowana hipoteza do pytania 5, skoro pojawia się pytanie o istnienie różnic? Zatem wydaje się, iż Doktorantka zakładała istnienie różnic. Nie ma przecież konieczności formułowania hipotez kierunkowych jeśli brakuje uzasadnienia merytorycznego.

Grupy kliniczna i kontrolna zostały dobrze dobrane. Biorąc jednak pod uwagę badane zmienne zależne, szkoda, że w doborze do grup lub w analizach, nie zostały uwzględnione takie zmienne jak status społeczno-ekonomiczny rodziny czy wykształcenie matki i wykształcenie ojca.

Grupa osób badanych była wyraźnie zróżnicowana wiekowo (dzieci pomiędzy 4 a 18 rokiem życia). Jednak rozumiem, że wynikało to z dostępności pacjentów pojawiających się w szpitalu. Zatem, aby zebrać grupę o zakładanej liczebności co najmniej 30 osób, należało zaakceptować takie rozwiązanie. Oczywiście zabieg ten wymaga ostrożności w wyciąganiu i uogólnianiu wniosków. Autorka udowodniła, że ma tego świadomość i nie popełniła błędu nadinterpretacji. Grupę kontrolną dobrano parami tak, aby maksymalnie zniwelować wpływ zmiennej wiek. Najmłodsze dziecko w grupie kryterialnej miało 4 lata i 1 miesiąc i w identycznym wieku był najmłodszy badany w grupie kontrolnej. Taka sama sytuacja ma miejsce w przypadku najstarszego badanego, w obu grupach osoby te miały 17 lat i 10 miesięcy. Prawdę mówiąc, zdziwiło mnie, jak możliwe było tak bardzo staranne dobranie par dzieci pod względem wieku, czy w opisie nie ma jednak jakiejś drobnej pomyłki?

Zastosowano adekwatne metody badań założonych zmiennych. Autorka dobrze poradziła sobie z trudnym zadaniem dobrania porównywalnych narzędzi do oceny poszczególnych zmiennych zależnych dla badanych w dwóch kategoriach wiekowych: dzieci młodszych (4-7 lat) (TRJ; Neutralny Kulturowo Test Inteligencji Cattella – wersja 1 CFT 1-R; podtesty Trójkąty i Historyjki z KABC-II; Bateria Testów do badania zdolności językowych i komunikacyjnych dla Dzieci LCTB) i starszych (8-18 lat)(TRJ; Neutralny Kulturowo Test Inteligencji Cattella – wersja 2 CFT 20-R; podtesty Trójkąty i Historyjki z KABC-II; Bateria Testów do badania zdolności językowych i komunikacyjnych dla dzieci LCTB lub RHLB).

Mam zastrzeżenia do opisu zmiennych zależnych, sądzę bowiem, że zmienną zależną w ocenianym projekcie jest funkcjonowanie poznawcze, w tym językowe. Natomiast może ona przyjmować różne wartości czy też poziomy, funkcjonowanie może być prawidłowe, ale też mogą występować w nim opóźnienia lub deficyty. Obecność, rodzaj deficytów lub opóźnień rozwoju poznawczego to nie są nowe/inne zmienne zależne.

Innym, budzącym zastrzeżenia, elementem opisu podstaw metodologicznych badań własnych jest brak charakterystyki wskaźników zmiennych i źródeł ich uzyskiwania. To niezwykle istotny fragment opisu projektu badań i warunkujący dobrą percepcję części z opisem wyników oraz ich interpretacją. Uwaga ta odnosi się do wszystkich zmiennych, ale szczególnie do zmiennej „występowanie oraz rodzaj objawów klinicznych”, a także „lateralizacji”. W charakterystyce metod diagnostycznych można znaleźć informację, że podczas wywiadu z rodzicami uzyskiwano informację na temat obserwowanych u dziecka objawów. Zatem źródłem informacji o tzw. objawach klinicznych był wywiad z rodzicami. Nie wiadomo czy te dane były weryfikowane na podstawie analizy dokumentacji medycznej, czy przyjęto wstępnie zbiór objawów, który stanowił punkt wyjścia do poszukiwania

określonych objawów u dziecka (pytanie o to rodziców), czy zadawano pytania otwarte? To mogło mieć znaczący wpływ na uzyskanie informacji o obecności niepokojących symptomów.

Odrębnym zagadnieniem jest ocena tzw. lateralizacji, Autorka wskazuje, że oceniono ten wymiar funkcjonowania dziecka na podstawie informacji od rodziców i przy pomocy prób klinicznych. Ale nie zostało podane, jakich i w jaki sposób ostatecznie podejmowano decyzję o ocenie tzw. formuły lateralizacji. Co zatem było wskaźnikiem lateralizacji?

Brakuje także podpunktu zawierającego opis modelu analiz statystycznych.

Wyniki badań zostały zaprezentowane w formie przejrzystych tabel, wykresów i odpowiednich komentarzy.

Najciekawszym wynikiem jest różnica pomiędzy grupą kliniczną a kontrolną wśród badanych z lateralizacją skrzyżowaną, na korzyść grupy dzieci z torbielami, co w dyskusji zostało ciekawie zinterpretowane. Mam jednak wątpliwości odnośnie opisu wyników w punkcie 6.4 Funkcjonowanie poznawcze a zgłaszane objawy. Otóż pojawia się tam informacja, iż poszukiwano związków różnych aspektów funkcjonowania językowego i poznawczego ze zgłaszanymi objawami ogółem oraz z podziałem na objawy wielu rodzajów. Niestety ten punkt jest niejasny ze względu na, wspomniany uprzednio, brak wskaźników zmiennych. Tabela 1 (s.70) zawiera spis 19 niepokojących objawów o bardzo różnym znaczeniu i sile np. napady padaczkowe, zmiana charakteru, zawroty głowy, problemy z koncentracją, a wiele z tych objawów występowało tylko u jednego badanego. Trudno ustalić, czy u jednego badanego obecne były dwa, trzy czy zawsze tylko jeden objaw niepokojący. W opisie na stronie 69 znajduje się informacja łącząca objawy w trzy grupy: dolegliwości somatyczne, deficyty poznawcze i problemy psychologiczne i emocjonalne. Jak zatem wykonywane były obliczenia? Brakuje jasnej informacji, czy w analizach statystycznych uwzględniano wymienione grupy objawówczy też objawy pojedyncze.

W podsumowaniu wyników badań punkt 5 *niezależnie od lokalizacji torbieli, pacjenci z obydwu grup uzyskali porównywalne wyniki w teście inteligencji jest tożsamy z punktem 1* *W badanej grupie dzieci z torbielami pajęczynówki nie odbiegają od dzieci zdrowych pod względem ogólnego potencjału intelektualnego (...)* Tego typu powtórzenia wynikają z niedociągnięć w pytaniach badawczych.

Rezultaty badań jedynie częściowo potwierdziły hipotezy badawcze. Nie stwierdzono różnic pomiędzy dziećmi z torbielami a zdrowymi pod względem ogólnego potencjału intelektualnego, natomiast zidentyfikowano różnice w funkcjonowaniu językowym. Lokalizacja torbieli ma znaczenie dla jakości funkcjonowania językowego badanych,

szczególnie istotne znaczenie ma lokalizacja prawostronna. Osoby z taką właśnie lokalizacją torbieli wykazują trudności głównie w złożonych sytuacjach i zadaniach językowych.

Wnioskowanie i interpretacja oraz dyskusja wyników są poprowadzone bardzo dobrze. Doktorantka ukazała wysokie umiejętności w zakresie wykorzystania już opublikowanych danych, do wyjaśniania rezultatów badań własnych. Sposób Jej myślenia o wynikach jest przekonujący i dobrze ulokowany w literaturze. Doceniam także ostrożność Doktorantki w formułowaniu wniosków czyli wystrzeganie się nadmiarowej interpretacji. To niezbędna cecha zachowania badacza. Ważne jest to, że Autorka wskazała, iż torbiele pajęczynówki, wbrew często ujawnianemu pogładowi o bezobjawowym przebiegu, powodują symptomy, które mogą/powinny stać się powodem diagnozy neurologicznej. Szczególnie interesujące są rozważania na temat powodów obecności deficytów językowych w prawostronnie zlokalizowanych torbielach.

Podsumowując całość dysertacji, oceniam ją jako bardzo wartościową, kliniczną pracę empiryczną, mającą też istotną wartość aplikacyjną. Wyniki badań uzupełniają istniejący stan wiedzy o nowe, ciekawe dane na temat rozwoju dzieci i młodzieży z torbielami pajęczynówki, co w kontekście faktu relatywnie częstego występowania malformacji, jest znaczące. Między innymi mogą stanowić źródło hipotez diagnostycznych w przypadkach dzieci wykazujących subtelne, specyficzne zakłócenia rozwoju językowego.

W ostatecznej konkluzji, analizując bez wątplenia wiele mocnych stron i zalet dysertacji oraz uwzględniając wskazane niedociągnięcia uważam, że praca spełnia w pełni warunki ustawowe przewidziane w art. 13 Ustawy z dnia 14 marca 2003 roku o stopniach naukowych i tytule naukowym oraz o stopniach i tytule w zakresie sztuki. Dlatego wnoszę o jej przyjęcie i dopuszczenie mgr Agnieszki Rojczyk do obrony rozprawy doktorskiej.

Z-ca Dyrektora Instytutu

dr hab. Aneta Borkowska, prof. UMCS