

dr hab. Katarzyna Kaczorowska-Bray, prof. UG

Gdańsk, 8 czerwca 2023 r.

Instytut Logopedii

Uniwersytet Gdański

Recenzja

rozprawy doktorskiej mgr Gabrieli Lorens

„Efekty terapii prowadzonej według koncepcji Castillo Moralesa®

a jakość życia rodziny dziecka z zespołem Downa w percepcji matki”

(Promotor: dr hab. Jarosław Rola, prof. APS

Promotor pomocniczy: dr n. o zdr. Anna Hadamus)

Akademia Pedagogiki Specjalnej im. Marii Grzegorzewskiej, Warszawa 2023

Do specyficznych zaburzeń neurorozwojowych, interesujących dla logopedy z racji współwystępowania zaburzeń rozwoju mowy i języka, zaliczyć można ponad 500 zespołów o podłożu genetycznym, które mogą powodować niepełnosprawność intelektualną (Griffer 2012: 218). Jako ich przykład podaje się zazwyczaj zespół Downa (ZD), zespół kruchego chromosomu X (FXS) oraz zespół Williamsa, traktując charakterystykę problemów komunikacyjnych notowanych w tych syndromach jako ilustrację tezy o różnorodności zaburzeń, mogących wystąpić w grupie osób z niepełnosprawnością intelektualną (NI). Spośród nich najczęściej diagnozowana i najlepiej poznana jest trisomia 21. Przedmiotem rozważań w niniejszej rozprawie doktorskiej Autorka uczyniła, jak pisze: „efekty terapii wg koncepcji Castillo Moralesa® w zakresie jakości życia rodzin z dzieckiem z zespołem Downa. Stworzony program badawczy oraz uzyskane wyniki uzupełniają lukę w dostępnych opracowaniach dotyczących koncepcji CM® i jej wpływu na jakość życia rodziny z dzieckiem z niepełnosprawnością intelektualną towarzyszącą trisomii 21” (s. 151). Z całą pewnością zespół Downa to jedna z wiodących genetycznych przyczyn NI (Roberts i in., 2008). Jako jednostka kliniczna rozpoznawany jest od około 160 lat. Częstość występowania określa się jako 1 przypadek na 650–1000 narodzin, w zależności od dostępności w danym kraju badań prenatalnych oraz przepisów prawa aborcyjnego (McDuffie i Abbeduto 2009: 5; Szymańska, Szczepanik 2017: 36; Berry-Kravis, Myers i Roizen 2019: 266). Osoby z zespołem Downa

cechują wieloukładowe strukturalne i funkcjonalne nieprawidłowości (m.in. wrodzone choroby i wady serca, zaburzenia słuchu i wzroku) ujawniające się w ciągu życia oraz charakterystyczny fenotyp (Antonarakis i Epstein, 2006). Specyficzne cechy fizyczne widoczne są między innymi w obrębie twarzy, dłoni i stóp. Obecnie szacuje się, że dla tej grupy charakterystycznych może być około 200 nieprawidłowości, przy czym ich występowanie jest sprawą indywidualną i nie ma takiej cechy, która byłaby obecna w 100% przypadków. W większości opisów funkcjonowania tych osób podkreśla się, że ich rozwój językowy i umiejętności komunikacyjne są szczególnie zaburzone w porównaniu do innych grup z NI podobnego stopnia (Griffer 2012: 253; Smith 2006:77). Mona Griffer i Vijayachandra Ramachandra (2012: 426) wyróżniają pięć elementów tworzących bazę rozwoju językowego dziecka. Są to: potencjał intelektualny, możliwości fizycznej eksploracji otoczenia, prawidłowo funkcjonujące analizatory słuchu i wzroku oraz interakcje społeczne. Zaburzenia w obrębie każdego z nich mogą być kompensowane dzięki wykorzystaniu pozostałych elementów. Chcąc wskazać główne przyczyny problemów w komunikacji językowej osób z ZD, należałoby zwrócić uwagę na występującą tu niepełnosprawność intelektualną, hipotonię, specyficzną budowę aparatu mowy oraz problemy sensoryczne. Powszechność tych nieprawidłowości skutkuje koniecznością szybkiej diagnozy logopedycznej i podjęcia działań, wspierających rozwój tej grupy dzieci.

W literaturze przedmiotu utrwalony jest stereotypowy wizerunek osoby z ZD szczęśliwej, pogodnej, spokojnej oraz empatycznej. Jednakże najnowsze badania behawioralne nie potwierdzają w pełni takiej charakterystyki, wskazując na częsty w tej grupie upór i zachowania obsesyjne. W większości osoby te negatywnie także reagują na zmiany w otoczeniu, wpływające na ich nawyki i upodobania (Clarke 2006: 65). W porównaniu z populacją generalną obserwuje się tu wyższe ryzyko wystąpienia problemów behawioralnych, emocjonalnych i psychiatrycznych (18-23%) (Dyken 2007: 273; Berry-Kravis, Myers, Roizen 2019: 273). W okresie dzieciństwa i młodości u osób z ZD notuje się wysoki wskaźnik występowania zachowań prowokacyjnych (np. 73% nieposłuszeństwo, 65% kłótniowość i chęć zwrócenia na siebie uwagi - 50%), przy jednocześnie rzadko obecnych zachowaniach agresywnych. Do tego obserwowane są często problemy w koncentracji uwagi i impulsywność.

Biorąc pod uwagę możliwość wystąpienia powyższych problemów behawioralnych, nie najlepszy ogólny stan zdrowia oraz reakcje otoczenia na narodziny dziecka z wadą genetyczną, problematykę jakości życia rodziny, szczególnie w ocenie matek, na których często spoczywa

główny ciężar opieki i rehabilitacji dziecka, podjęty w rozprawie temat należy uznać za szczególnie ważki.

Jedną z metod, wykorzystywanych w terapii neurologopedycznej, jest metoda Castillo Moralesa. Zdecydowanie jest jedną z ciekawszych ze względu na swoje kompleksowe podejście do pacjenta oraz nakierowanie oddziaływań także na jego najbliższe otoczenie. Należy uznać, że w swej pracy Doktorantka zajęła się problematyką bardzo ciekawą badawczo, wyniki zaś Jej badań mogą mieć znaczenie dla dużej grupy osób – dzieci z ZD oraz ich opiekunów i terapeutów.

Uwzględniając powyższe argumenty wybór tematu pracy należy uznać za w pełni uzasadniony, bardzo ciekawy badawczo, mający także wyraźny aspekt aplikacyjny.

Przedłożona do recenzji dysertacja doktorska jest pracą obszerną, liczącą w całości 418 stron, z czego tekst główny obejmuje stron 294. Pozostałą część doktoratu stanowią streszczenia w języku polskim i angielskim (s. 6-17), wykaz tabel, rycin i wykresów, załączniki, zawierające m.in. druki karty badania neurologopedycznego, kwestionariusz ankietowy oraz kwestionariusz jakości życia rodziny. Tu znalazły miejsce także tabele z wynikami analiz statystycznych, opracowane na podstawie przeprowadzonych badań. Całość pracy kończy bogata *Bibliografia*, licząca 355 pozycji oraz 13 źródeł internetowych.

Praca w swej zasadniczej części składa się z ośmiu rozdziałów, poprzedzonych *Wstępem*. Układ rozdziałów nie budzi zastrzeżeń. Realizacja sformułowanego celu, materiał badawczy oraz metodologia znajdują swoje odzwierciedlenie w strukturze pracy. Należy podkreślić, że Doktorantka właściwie wyważyła proporcje między rozważaniami teoretycznymi, o charakterze referującym, metodologią badań, a analityczną częścią rozprawy, przy czym wszystkie te części skonstruowane są w sposób jasny, uporządkowany i precyzyjny.

We *Wstępie* do rozprawy Doktorantka wskazuje przesłanki wyboru podjętej tematyki badawczej, zwracając uwagę na frekwencję trisomii 21, a także dysfunkcje występujące w tej grupie, wymagającej wsparcia logopedycznego od okresu noworodkowego. Píše: „Wspomaganie rozwoju dzieci dotkniętych niepełnosprawnością nie powinno sprowadzać się jedynie do działań w zakresie usprawniania dziecka, ale również do wspierania kompetencji rodziców/opiekunów w celu pozbawienia ich przesądów i stereotypowej obserwacji, braku ukierunkowania na deficyty, a przede wszystkim na wzmacnianie nastawione na skupieniu się

na mocnych stronach dziecka, stanowiących doskonałą bazę w procesie terapeutycznym” (s. 25). Takie przekonanie uzasadnia wybór metody Castillo Moralesa, której oddziaływania dostarczają nie tylko wsparcia dziecku, niwelując jego problemy rozwojowe, ale także wpływając na kompetencje rodziców i opiekunów.

Teoretyczne podstawy dysertacji przedstawione zostały w obszernym, liczącym 116 stron rozdziale 1. Rozpoczyna go dokładna charakterystyka rozwoju dziecka z ZD, ze szczególnym uwzględnieniem specyfiki budowy i funkcjonowania strefy orofacialnej oraz nietypowego przebiegu rozwoju funkcji prymarnych. W związku z tematem pracy w kręgu zainteresowań Doktorantki znalazły się również takie zagadnienia, jak rozwój mowy i języka, typowy dla tej grupy dzieci oraz problematyka wczesnej interwencji logopedycznej, ważnej w przypadku pacjentów, u których konieczna jest obserwacja, wczesna diagnoza i terapia umiejętności komunikacyjnych oraz zapobieganie problemom w przyjmowaniu pokarmu. Rozdział ten nie budzi żadnych istotnych zastrzeżeń, a wręcz potwierdza bardzo dobrą znajomość przedstawianego przez Autorkę zagadnienia. Nasuwa mi się jedynie kilka drobnych spostrzeżeń. Pierwsze dotyczy periodyzacji rozwoju mowy, przywołanych w pracy. Oczywiście, wielość opracowań tej tematyki zmusza do dokonania wyboru. Warto byłoby jednak wskazać kryterium doboru przedstawionych w dysertacji stanowisk (L. Kaczmarek i J. Aitchison). Zabrakło mi także szerszego omówienia czynników, wpływających na przebieg rozwoju mowy i języka (s. 58) oraz odwołania się w podrozdziale 1.1.5. do nowszej literatury (np. Filipiak 2002; Dołęga, 2003; Porayski-Pomsta 2015; Grabias 2019; Porayski-Pomsta, 2023 itd.), podobnie jak w przypadku przytaczanych definicji mowy i języka. Należałoby także poprawić fragment tekstu (s. 59), w którym Autorka wyodrębnia głoski wargowo-dziąsłowe, niespotykane w języku polskim. Na tej samej stronie czytamy: „W okresie wyrazu, między 1. a 2. r.ż., występują prawie wszystkie samogłoski ustne oraz pojawiają się spółgłoski”. Tu również powinna Doktorantka doprecyzować, jakie spółgłoski zazwyczaj są w tej grupie wiekowej obserwowane. Trudno mi się także zgodzić ze stwierdzeniem, iż: „Nie powinno się porównywać dzieci między sobą, np. pod względem wymowy. Każde dziecko ma indywidualne tempo rozwoju (Kaczmarek 1996).” Oczywiście, każde dziecko ma indywidualnie tempo rozwoju, jednakże rozwój ten powinien zachodzić w określonych ramach czasowych.

Kolejny podrozdział Autorka poświęciła tematowi jakości życia, a zwłaszcza jakości życia rodzin osób z NI. Biorąc pod uwagę podjętą problematykę, istotne jest podkreślenie w tej części pracy wagi efektywnej komunikacji i bezpośredniego związku między jakością porozumiewania się ludzi a oceną jakości życia (Steward 2005). Należy docenić dużą dozę empatii i zrozumienia, które przejawia Doktorantka, opisując trudności opiekunów dziecka z trisomią 21, co wynika zapewne z Jej bogatego doświadczenia zawodowego. Podrozdział ten porządkuje definicje jakości życia oraz daje wgląd w sposoby pomiaru, stosowane w badaniach tej tematyki. W tej części pracy warto byłoby przemyśleć tytuł podrozdziału 1.4 *Jakość życia rodziny oraz rodzin osób z niepełnosprawnością intelektualną*, bo jest on nieprecyzyjny.

Kolejnym zagadnieniem przedstawionym w dysertacji jest neurofizjologiczna koncepcja Castillo Moralesa. W tejże części Autorka nie tylko wykazuje się znakomitą znajomością literatury, ale też dogłębną znajomością samej metody, którą wykorzystuje w praktyce zawodowej. Mamy tu więc do czynienia ze znakomitym połączeniem teorii i aspektów aplikacyjnych. Część teoretyczną kończy podrozdział 1.4. *Budowa i funkcjonowanie badanych mięśni twarzy*, w którym poruszono także zagadnienie napięcia mięśniowego i jego zaburzeń, kluczowe dla podjętych badań empirycznych.

Należy stwierdzić, że część teoretyczna pracy jest doskonałym wprowadzeniem w tematykę badawczą, podjętą przez Doktorantkę. W sposób uporządkowany i rzetelny omówiła zagadnienia, wymagające doskonałej znajomości literatury przedmiotu z zakresu nie tylko logopedii, ale także psychologii, pedagogiki specjalnej i nauk medycznych. Uzyskała dzięki temu bardzo solidne podstawy do dalszych części dysertacji (metodologicznej i empirycznej), stanowiących rezultat Jej badań nad efektywnością terapii Castillo Moralesa i jej wpływem na ocenę jakości życia rodzin dzieci z ZD.

Część metodologiczna jest zawsze swoistym probierzem wartości pracy, daje bowiem wgląd w warsztat badawczy naukowca, pozwala ocenić przebieg badań oraz rzetelność ich przeprowadzenia. Ta część rozprawy (s. 149-198) jest moim zdaniem skonstruowana w sposób świadczący o wysokim poziomie umiejętności Doktorantki, zdolności zaprojektowania i przeprowadzenia badań naukowych oraz opracowania ich wyników. Przedstawiono w tym rozdziale najistotniejsze informacje o projekcie badawczym, jasno sformułowany przedmiot i cele badań, sformułowano hipotezy badawcze. Na wysoką ocenę zasługuje rzetelne zaprezentowanie wykorzystanych metod badawczych, charakterystyka grupy badanych (dzieci

i ich matek), a także sposób analizy zebranych danych. Jak stwierdza Autorka: „Przeprowadzona analiza służy określeniu związku pomiędzy efektami terapii wg CM® a życiem rodziny dziecka z niepełnosprawnością. W obszarze szczególnych zainteresowań znajduje się jednak wpływ efektów terapii CM® na jakość życia rodzin z dzieckiem z zespołem Downa” (s. 149). Należy docenić podjęcie tak trudnej tematyki badawczej, która zawsze może spotkać się z zarzutem subiektywności oceny uzyskanych wyników. Należy podkreślić, że Doktorantka podjęła szereg wysiłków, aby uzyskać wysoki poziom zobiektywizowania zebranych danych. Zademonstrowany w tym rozdziale warsztat badawczy wyraźnie pokazuje, iż Doktorantka zdaje sobie sprawę z faktu, że zadaniem każdej nauki jest skrupulatne rejestrowanie faktów i rzetelne ich objaśnianie. Za cenne należy uznać wykorzystanie w badaniach odczytywania aktywności bioelektrycznej mięśni sEMG, co pozwoliło na wiarygodną ocenę skuteczności stosowanego postępowania usprawniającego oraz skonstruowanie przez Autorkę *Karty badania neurologopedycznego*.

Część metodologiczna, którą należy uznać za bardzo udaną, budzi jedynie kilka wątpliwości. Jedną z nielicznych uwag, które nasunęły mi się podczas lektury tej części pracy, dotyczy możliwości poznawczych badanych dzieci. Przygotowując dysertację do druku należałoby wyraźnie sprecyzować, ilu spośród badanych uzyskało orzeczenie o NI i (jeśli to możliwe) jakiego jest ona stopnia. Dobrze byłoby także, aby Autorka wyraźnie podkreśliła swoje powiązania z logopedią. Píše bowiem (s. 164): „Badania, które przeprowadzono w niniejszej pracy, są z tzw. pogranicza (ang. Of examining from the borderland). W nauce pedagogicznej pogranicze dotyczy nauk pomocniczych i pokrewnych, w tym przypadku m.in.: psychologii, socjologii, nauk o zdrowiu (Krajewski 2006).” W przypadku podjętych przez nią działań związek z logopedią jest bardzo silny.

Imponująco przedstawia się ostatnia część pracy (rozdziały 3 – 8), która prezentuje rezultaty przeprowadzonych badań, wnioski oraz dyskusję wyników. Należy podkreślić, że do interpretacji zebranego materiału badawczego Doktorantka jest bardzo dobrze przygotowana. Wynika to z Jej odczytania w literaturze naukowej, jak i bogatych doświadczeń w pracy zawodowej. Uderzająca jest staranność mgr Gabrieli Lorens w zestawianiu materiału naukowego i sumienność w przytaczaniu zaobserwowanych faktów. Dzięki przeprowadzonej analizie statystycznej uzyskane wyniki udało się zobiektywizować oraz wskazać, które ze stwierdzonych między grupami badanych różnic mają charakter istotny. Tak rzetelna analiza

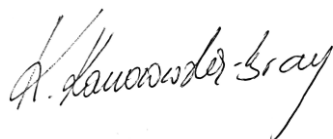
zebranego materiału empirycznego pozwala Autorce na wyciąganie bardzo dobrze udokumentowanych wniosków. Analiza zebranego materiału, zaprezentowana przez Doktorantkę, w pełni mnie przekonuje, podobnie jak sformułowane przez Nią wnioski. Za bardzo interesujący należy uznać rozdział 6. *Praktyczne implikacje przeprowadzonych badań – możliwości w zakresie zastosowania terapii prowadzonej według koncepcji Castillo Moralesa® w polskim systemie wczesnej interwencji*, w którym Autorka podkreśla praktyczne walory przeprowadzonych przez siebie badań oraz rozdział kolejny *Refleksja badawcza*, w którym wskazuje nowe płaszczyzny badawcze.

Całość dysertacji godnie wieńczy *Podsumowanie i wnioski*, gdzie znajdziemy syntetyczne odniesienie do założonych w pracy celów badawczych.

Mam pewne uwagi dotyczące technicznych aspektów ocenianej dysertacji. W wielu przypadkach Autorka umieszcza ogólne odsyłacze do pozycji bibliograficznych, przywoływanych w tekście (np. s. 33, 34). Jest to oczywiście dopuszczalne, jeśli odwołujemy się do bardzo ogólnych twierdzeń zawartych w danym tekście bądź wskazujemy na opracowanie jako całość. Jeśli jednak przywołujemy konkretne dane, podziały, klasyfikacje - należy podać strony tekstu, gdyż tego wymaga od nas rzetelność naukowa. Praca wymagałaby także dokładniejszej korekty. W wielu miejscach pojawiły się błędy interpunkcyjne, utrudniające zrozumienie poszczególnych zdań oraz literówki, co zapewne wynika z objętości doktoratu. W pracy zdarzają się także błędy stylistyczne. Warto byłoby również przyrzeć się bibliografii końcowej, brak w niej bowiem konsekwencji w zapisie (np. przy niektórych pozycjach podane jest wydawnictwo, przy innych nie, np. pozycja 34) oraz pojawiają się błędy w uporządkowaniu (np. pozycje 90 i 91). Oczywiście wskazane pomyłki i uchybienia nie mają wpływu na ostateczną pozytywną ocenę przedłożonej do recenzji pracy doktorskiej.

Mimo przedstawionych powyżej pytań i wątpliwości, które rodzi lektura każdej pracy badawczej, oceniam pozytywnie zaprezentowaną rozprawę doktorską. Umiejętność skonstruowania podstaw metodologii badań własnych, materiał badawczy zawarty w pracy i forma jego opracowania, znajomość literatury przedmiotu świadczą o bardzo dobrym przygotowaniu Doktorantki do dalszej pracy naukowej. Mam nadzieję, że badania problematyki poruszonej przez panią Gabrielę Lorens będą przez Nią kontynuowane.

Uważam, że rozprawa „Efekty terapii prowadzonej według koncepcji Castillo Moralesa® a jakość życia rodziny dziecka z zespołem Downa w percepcji matki” spełnia wymagania stawiane rozprawom doktorskim. Z przekonaniem stawiam wniosek o dopuszczenie mgr Gabrieli Lorens do dalszych etapów przewodu doktorskiego.

Handwritten signature in cursive script, reading "H. Kluonska-Bray".