

Warszawa, dnia 11.05.2023 r.

dr hab. Olga Jauer-Niworowska

Instytut Polonistyki Stosowanej

Zakład Logopedii i Emisji Głosu

Uniwersytet Warszawski

ORCID: 0000-0001-8488-2933

Recenzja rozprawy doktorskiej Pani mgr Gabrieli Lorens,

pt.: *Efekty terapii prowadzonej według koncepcji Castillo Moralesa® a jakość życia rodziny dziecka z zespołem Downa w percepcji matki,*
powstałej pod kierunkiem dr hab. Jarosława Roli, prof. APS
oraz promotor pomocniczej, dr n. o zdr. Anny Hadamus
w Akademii Pedagogiki Specjalnej im. M. Grzegorzewskiej w Warszawie.

Przedstawiona do oceny rozprawa doktorska autorstwa Pani mgr Gabrieli Lorens nosi tytuł: *Efekty terapii prowadzonej według koncepcji Castillo Moralesa® a jakość życia rodziny dziecka z zespołem Downa w percepcji matki*. Praca ma charakter interdyscyplinarny. Autorka łączy ocenę skuteczności neuromotorycznej terapii opartej na koncepcji autorstwa dr Rodolfo Castillo Moralesa® z badaniami psychologicznymi poświęconymi ocenie jakości życia rodzin dzieci z niepełnosprawnością intelektualną w percepcji ich matek. Treść rozprawy jest zgodna z podanym tytułem. Uczestnikami badań zaprezentowanych w niniejszej rozprawie są dzieci z trisomią 21. chromosomu (in. zespołem Downa) oraz ich matki.

Tematyka badań jest nowatorska. Dotychczasowe badania dotyczące efektywności terapii ustno-twarzowej prowadzonej metodą Castillo Moralesa® skupiały się na ocenie sprawności funkcjonalnej mięśni języka, warg lub podniebienia uzyskiwanej po terapii wskazaną metodą u dzieci z zaburzeniami neurorozwojowymi (m.in. Limbrock, Fisher, Avalle 1991; Korbmacher, H., Limbrock, J., Kahl-Nieke, B. 2006; Marinone, S., Gaynor, W., Johnston, J., Mahadevan, M. 2017). Ujęcie tematyki zaproponowane przez Panią mgr Gabrielę Lorens zakłada poszerzenie dotychczasowej perspektywy analiz. Łączy podejście psychologiczno-pedagogiczne z analizą medyczno-logopedyczną. Wskazane podejście umożliwia pełną ocenę możliwości motorycznych i komunikacyjnych badanych dzieci.

Autorka dysertacji przyjmuje za punkt wyjścia konieczność uwzględnienia wieloaspektowych uwarunkowań kształtujących poziom samodzielności dzieci z niepełnosprawnością intelektualną spowodowaną trisomią 21. chromosomu oraz wielość czynników wpływających na subiektywnie odczuwaną jakość życia ich matek. Tematyka zaprezentowanych badań jest również ważna społecznie, gdyż dotyczy metod wsparcia terapeutycznego osób z niepełnosprawnością intelektualną i ich rodzin, co wpisuje się w założenia dotyczące edukacji inkluzywnej.

Przejdę teraz do charakterystyki układu pracy. Przedstawiona do oceny rozprawa doktorska liczy 418 stron. Na pierwszych pięciu stronach pracy znajdziemy podziękowania autorki dla osób, które przyczyniły się do powstania niniejszej pracy doktorskiej, a także oświadczenie autorki rozprawy potwierdzające autorski charakter przeprowadzonych badań i uzyskanych wyników. Strony 6-17 zawierają streszczenia rozprawy w językach polskim i angielskim.

Właściwą treść pracy poprzedza spis treści oraz spis skrótów i objaśnienia terminów użytych w tekście głównym. Ułatwiają one czytelnikowi percepcję zasadniczej treści rozprawy. Pracę otwiera wstęp, w którym autorka krótko uzasadnia podjęcie tematyki badań. Zasadnicza treść rozprawy została podzielona na osiem części. Część pierwsza poświęcona jest przeglądowi piśmiennictwa związanego z tematyką prowadzonych badań. W części drugiej zaprezentowana została metodologia badań. Części trzecia i czwarta zawierają opis i podsumowanie wyników badania. W rozdziale piątym zamieszczona jest dyskusja wyników, zaś rozdział szósty zawiera implikacje praktyczne płynące z przeprowadzonych badań. Dwie ostatnie części poświęcone są skrótemu podsumowaniu uzyskanych wyników i wnioskowi końcowemu. Starania o bardzo dokładną prezentację wszystkich uzyskanych wyników sprawiają, że czytelnik niekiedy gubi się w przedstawianych treściach. Praca mogłaby zyskać gdyby bardziej uwypuklić treści podsumowujące i dyskusję wyników – zawartą w rozdziałach od piątego do ósmego. Dobrym rozwiązaniem, które można wykorzystać w monografii podoktorskiej wydaje się przeniesienie tabel zawierających szczegółowe zestawienia wyników ilościowych do aneksu, a pozostawienie w tekście głównym jedynie tabel podsumowujących wyniki.

Pracę kończy bibliografia, która obejmuje 355 publikacji w wersji drukowanej oraz 13 źródeł internetowych. Dobór publikacji jest adekwatny do treści rozprawy i wskazuje na dobrą orientację autorki w złożonej, interdyscyplinarnej tematyce realizowanych badań. Warto wspomnieć o załącznikach, w których autorka zamieściła narzędzia badawcze: autorskie arkusze -wywiadu oraz -badań ankietowych, a także kwestionariusz do oceny jakości życia, a także informacje dla osób badanych i formularze zgody na udział w badaniu. Wskazane elementy pracy dopełniają szczegółowego opisu postępowania badawczego i potwierdzają dbałość autorki o dopełnienie wymaganych standardów badań naukowych.

Podsumowując ocenę układu pracy chciałabym podkreślić, iż mimo powyższych uwag uważam, że struktura rozprawy jest przemyślana i służy uporządkowanej prezentacji treści. Ogólna ocena tej części dysertacji jest więc pozytywna.

W kolejnej części recenzji skupię się na merytorycznej ocenie przedłożonej rozprawy. Jak już wspomniałam, przyjęta przez autorkę szeroka perspektywa analiz jakościowych i ilościowych uzyskanych wyników stanowi istotny walor zaprezentowanej pracy. Podejmując się realizacji badań Doktorantka musiała wykazać się wiedzą z różnych dziedzin i dyscyplin naukowych. Wśród nich wymienić można:

1. powiązaną z medycznymi podstawami logopedii specjalistyczną wiedzę logopedyczną dotyczącą oceny funkcjonalnej kompleksu orofacialnego;
2. wiedzę psychologiczno-pedagogiczną dotyczącą warunków i sposobów stymulacji rozwoju samodzielności dziecka z niepełnosprawnością intelektualną (w tym samodzielności w czynnościach jedzenia i picia oraz komunikacji);

3. wiedzę z zakresu psychologii, szczególnie psychologii zdrowia dotyczącej definicji terminu *jakość życia* oraz sposobów badania tego wielowymiarowego konstruktu.

W rozdziale poświęconym przeglądowi literatury fachowej związanej z tematyką badań autorka przedstawiła informacje dotyczące: zespołu Downa, sposobu definiowania terminu *jakość życia* i badań dotyczących jakości życia, ze szczególnym uwzględnieniem współczesnych koncepcji z zakresu medycyny i psychologii zdrowia, koncepcji terapeutycznej Castillo Moralesa®. Poniżej przedstawię skrótowo ocenę każdego z wymienionych wątków.

Podrozdział poświęcony charakterystyce podłoża i objawów trisomii 21. chromosomu cechuje duża dbałość o adekwatny do tematyki badań dobór przedstawianych treści. Autorka wymienia aberracje chromosomalne leżące u podłoża wskazanego schorzenia oraz przedstawia te informacje z literatury medycznej, które służą za punkt wyjścia przy formułowaniu programów terapeutycznych adresowanych do dzieci z trisomią 21. Wymienia nieprawidłowości w rozwoju i funkcjach mózgu dzieci z zespołem Downa, nieprawidłowości układu sercowo-naczyniowego i moczowo-płciowego, a także układu hormonalnego oraz układów sensorycznych - wzroku i słuchu. Szczególną uwagę poświęca dysfunkcjom układu stomatognatycznego i metodom ich terapii, co jest uzasadnione w świetle prowadzonych badań. Wskazuje na występowanie u dzieci z trisomią 21 trudności w rozwoju językowym. Odwołuje się do literatury medycznej (Matthews-Brzozowska, Nęcka 2007), pedagogicznej i logopedycznej (Aitchisson 1991, Chapman 1997) zwracając uwagę na zależności między zaburzeniami neurorozwojowymi, poziomem integracji sensorycznej a rozwojem mowy u dzieci z zespołem Downa. Autorka korzysta zarówno z publikacji dawniejszych (Aitchisson 1991, Chapman 1997), jak i nowszych (m.in. Wilken 2010, Pluta-Wojciechowska 2013, 2022), których treść łączy się z tematyką prowadzonych badań. Słusznie podkreśla obecność powiązań między sprawnością aparatu orofacjalnego, rozwojem poznawczym a rozwojem mowy.

Z recenzenckiego obowiązku pozwolę sobie na jedną drobną uwagę dotyczącą treści niniejszego podrozdziału. Odwołując się na str. 58. niniejszej rozprawy do prac Leona Kaczmarka autorka określiła go mianem „twórcy polskiej logopedii”. Chciała prawdopodobnie w ten sposób podkreślić wagę dokonań autora. Leon Kaczmarek był niezaprzeczalnie jednym z ważniejszych naukowców zajmujących się logopedią, a jego badania nad rozwojem mowy dziecka stanowiły inspirację dla późniejszych badaczy (Porayski-Pomsta 2015, 2023). Bardziej trafne wydaje się jednak użycie takich określeń jak „uczony znany w polskiej logopedii”, „postać ważna dla polskiej logopedii”. Termin „twórca” oznacza osobę, która coś stworzyła - zapoczątkowała. Sugeruje, że początek prowadzonych w Polsce badań nad mową i jej zaburzeniami wiązać należy z nazwiskiem Leona Kaczmarka. Początki polskiej logopedii zostały przedstawione bardziej szczegółowo m.in. w publikacji *Logopedia warszawska Historia i czasy współczesne*, autorstwa Józefa Porayskiego-Pomsty i Danuty Emiluta-Rozya (Porayski-Pomsta, Emiluta-Roza 2018). Sięgają one XIX wieku i wiążą się z nazwiskami pedagogów i lekarzy z warszawskiego środowiska naukowego, takimi jak Jakub Falkowski, Władysław Ołtuszewski oraz lingwistów, jak Baudouin de Courtenay czy Tytus Benni.

Poczyniona uwaga ma charakter poboczny i nie zmienia generalnie wysokiej oceny treści niniejszego podrozdziału. Chcę raz jeszcze podkreślić, że Pani mgr Gabriela Lorens wykazuje się rzetelną wiedzą dotyczącą objawów klinicznych trisomii 21 i ich wpływu na strukturę i

sprawność miofunkcjonalną kompleksu ustno-twarzowego oraz rozwój intelektualny i językowy dzieci z tym schorzeniem.

Autorka dysertacji przybliży także czytelnikom zróżnicowane ujęcia konstruktu *jakość życia* oraz badań dotyczących poziomu jakości życia. Opisuje zróżnicowanie i ewolucję poglądów dotyczących wskazanego konstruktu – od starożytności po czasy współczesne. Wskazuje na dużą liczbę możliwych definicji wskazanego terminu (Oleś 2010). Zawiera także w oparciu o lekturę wybranych źródeł syntetyczne zestawienia powszechnie używanych definicji jakości życia. Adekwatny dobór materiałów źródłowych w postaci artykułu przeglądowego zawierającego syntetyczne zestawienie ujęć teoretycznych i klasyfikacji jakości życia pozwolił autorce przedstawić ewolucję poglądów dotyczących wskazanego konstruktu (m.in. Oleś 2010, Trzebiatowski 2011). Gabriela Lorens szczególną uwagę zwraca na rozumienie i badania jakości życia w medycynie. Takie podejście jest uzasadnione tematyką badań prezentowanych w rozprawie. Wskazuje na fakt, iż badania jakości życia mają charakter subiektywno-obiektywny i opierają się na analizie głównych sfer – fizycznej, psychologicznej, niezależności/samodzielności pacjenta, relacji społecznych, środowiska z wyróżnieniem subdomen szczegółowych. Na przykładzie badań nad jakością życia w chorobie nowotworowej, podkreśla znaczenie terapeutycznej relacji i właściwej komunikacji z pacjentem dla jakości leczenia (de Walden-Gałuszko, Majkiewicz 1994). Doktorantka słusznie zauważa, że aspekty biologiczne, psychiczne, społeczne kształtujące jakość życia osób z niepełnosprawnością, pozostają ze sobą w dynamicznej relacji. Wskazuje na znaczenie stanu zdrowia, kondycji psychicznej oraz warunków środowiskowych, w jakich żyje osoba borykająca się z chorobą lub z niepełnosprawnością dla jakości jej życia (m.in. Schalock i Verdugo 2012). Podkreślić należy uwzględnienie przez autorkę ujęć wskazujących nie tylko na ograniczenia, ale i zasoby jednostki pozwalające na adaptację do niepełnosprawności. Podejście to jest zgodne ze współczesnymi poglądami badaczy zajmującymi się psychologią zdrowia (Heszen 2014, Heszen-Celińska, Sęk 2020). Przyjęcie perspektywy relacyjnej jest zgodne ze współczesnym, zintegrowanym ujęciem złożonych zjawisk z pogranicza nauk społecznych i medycznych. Wskazana perspektywa uzasadnia rozszerzenie rozważań na zagadnienia jakości życia całej rodziny, w której rozwija się dziecko z niepełnosprawnością. Doktorantka dokonuje przeglądu narzędzi i metod badawczych stosowanych w odniesieniu do oceny jakości życia osób z niepełnosprawnością i ich rodzin (m.in. de Walden -Gałuszko, Majkiewicz 1994, Brown, Schalock, Brown 2009, Family Quality of Life Survey 2006, tłum. Zasepa, Wapiennik, Wołowicz 2011, Brown 2017). W oparciu o przegląd publikacji fachowych, Pani mgr Gabriela Lorens zauważa konieczność wykorzystania wyników badań jakości życia osób z niepełnosprawnością intelektualną i ich rodzin w planowaniu polityki wsparcia, adresowanej nie tylko do samego dziecka z niepełnosprawnością, ale do całej jego rodziny.

W opisie metody Castillo Moralesa® autorka dysertacji nie tylko przedstawia techniki usprawniające pracę mięśni, lecz przede wszystkim stara się pokazać związki opisanych zasad usprawniania motorycznego z podłożem biologicznym (neurofizjologią i anatomią układu orofacialnego) oraz psychologicznym i społecznym. Wskazuje na powiązania zasad terapii z uwarunkowaniami psychospołecznymi i kulturowymi (bliskość fizyczna matki i dziecka jako pozwalająca na budowanie relacji bliskości i zapewniająca integrację polisensoryczną - dotyk,

wibracja ciepło, rytm). Podkreśla, iż wskazana metoda służy budowaniu komunikacji z dzieckiem.

Warto w tym kontekście podkreślić, iż rolą logopedy jest właśnie wspieranie komunikacji z otoczeniem, a sama komunikacja jest niezbędna dla zaspokojenia podstawowych potrzeb psychicznych oraz zapewnienia właściwych warunków dla rozwoju dziecka – w tym dla kształtowania jego samodzielności i niezależności. Tym samym badania logopedyczne powinny opierać się na interdyscyplinarnej współpracy badaczy nauk medycznych, społecznych i humanistycznych.

Za niezbędne kompetencje terapeuty pracującego zgodnie z koncepcją Castillo Moralesa® Doktorantka uznaje wrażliwość na potrzeby dziecka, umiejętność aktywnej obserwacji jego zachowań, a także elastyczność w działaniach i zdolność do dostosowywania oddziaływań terapeutycznych do indywidualnych potrzeb dziecka i jego rodziny. Pani mgr Gabriela Lorens podkreśla zasadność stosowania holistycznych oddziaływań obejmujących nie tylko terapię kompleksu ustno-twarzowego, lecz także ogólną stymulację polisensoryczną i terapię neuroruchową powiązaną z codzienną aktywnością dziecka z trisomią 21. Wskazuje jednocześnie na podobieństwo zaleceń terapeutycznych formułowanych przez Rodolfo Castillo Moralesa, dotyczących dostosowania poziomu trudności zadań do możliwości i zainteresowań dziecka, do koncepcji psychologicznych i pedagogicznych - Lwa Wygotskiego (1971) oraz Marii Montessori (2005). Trudno nie zgodzić się ze wskazanymi przez autorkę zaleceniami. Opierają się one nie tylko na rzetelnej wiedzy naukowej, którą autorka prezentuje w przytaczanym rozdziale, lecz także na Jej bogatym doświadczeniu klinicznym.

Wielość poruszanych w badaniach zagadnień implikowała konieczność szerokiego przeglądu piśmiennictwa. Sposób prezentacji treści zawartych w przeglądzie piśmiennictwa wskazuje na umiejętność interdyscyplinarnego ujęcia tematu i jednocześnie odzwierciedla specjalistyczną wiedzę autorki rozprawy, która pozwoliła Jej dokonać doboru treści adekwatnych do podjętych badań.

Rozdział metodologiczny niniejszej rozprawy liczy 50 stron (str. 148-198 przedłożonej rozprawy). Doktorantka wyczerpująco uzasadnia w nim przyjętą metodologię, opisuje procedury badania oraz użyte techniki i narzędzia. Na podstawie przeprowadzonej kwerendy literatury fachowej autorka formułuje dwie główne hipotezy badawcze.

Pierwsza z hipotez stwierdza wpływ terapii zgodnej z koncepcją Castillo Moralesa® na napięcie wybranych mięśni twarzy, funkcjonowanie kompleksu orofacjalnego oraz na poziom funkcjonowania dziecka z zespołem Downa w życiu codziennym.

Hipoteza druga wskazuje na wpływ opisaney metody terapii na jakość życia rodziny dzieci z trisomią 21. chromosomu w percepcji ich matek.

Celem weryfikacji hipotez badawczych autorka planuje i przeprowadza badania eksperymentalne z udziałem grupy kontrolnej z pomiarem początkowym i końcowym. Badania właściwe poprzedzone zostały etapem badań pilotażowych przeprowadzonych z udziałem 12 dzieci z trisomią 21. chromosomu. Uczestnicy badań pilotażowych nie brali udziału w badaniu właściwym. Zmienną niezależną stanowiło 30 sesji terapii zgodnej z koncepcją Castillo Moralesa®. Pani mgr Gabriela Lorens wyodrębniła 5 zespołów zmiennych zależnych poddanych ocenie w fazie pretestu i posttestu. Zmienne te oznaczyła literami alfabetu od A. do E. Były to: A. napięcie wybranych mięśni mimicznych (żwacza i mięśnia policzkowego); B. struktura i funkcjonowanie kompleksu orofacjalnego w spoczynku; C.

struktura i funkcjonowanie kompleksu orofacjalnego podczas karmienia; D. motywacja i funkcjonowanie dziecka w zakresie samoobsługi, zabawy i funkcji pokarmowych - w ocenie matki; E. poziom jakości życia rodziny dziecka z niepełnosprawnością intelektualną.

Doktorantka dokonała starannej operacjonalizacji wskazanych zmiennych, co udokumentowała na stronach 157-174 rozprawy w zestawieniach tabelarycznych. Wybrany przez doktorantkę sposób prowadzenia badań wymaga triangulacji metod. Autorka trafnie wykorzystuje metody i techniki medyczne i łączy je z metodami i narzędziami wykorzystywanymi w naukach społecznych – psychologii i pedagogice.

Trafność doboru narzędzi i technik badawczych oceniam wysoko. Pomiary napięcia mięśni przeprowadzone zostały przy użyciu elektromiografu Nu Track TM Alpha 2E i elektrod Noraxon Dual, ocenie struktury i funkcji mięśni kompleksu ustno-twarzowego w spoczynku i w czasie karmienia posłużyła Karta Badania Neurologopedycznego opracowana przez autorkę badania, zmiany w funkcjonowaniu badanych dzieci w oczach ich matek zostały ocenione przy użyciu ankiety autorstwa Gabrieli Lorens. Badanie poziomu jakości życia przeprowadzone zostało z użyciem wersji ogólnej Kwestionariusza Jakości Życia Rodziny - *Family Quality of Life Survey – general version, FQoLS-2006*- autorstwa Ivana Browna i zespołu, w tłumaczeniu Ewy Zasępy, Ewy Wapiennik i Agnieszki Wołowicz (Brown I. i wsp. 2006, tłum. Zasępa, Wapiennik, Wołowicz 2011).

Autorka rozprawy zdołała, mimo trudności związanych z okresem pandemii, zgromadzić liczną – początkowo 68-osobową, a w końcowym etapie 60-osobową grupę osób badanych – ochotników, którzy zgodzili się na udział w badaniu docelowym. W drodze losowania spośród 60 uczestników wyłonione zostały dwie równoliczne grupy - eksperymentalna i kontrolna. Autorka zadbała o zrównoważenie grup pod względem wieku i warunków rozwojowych. Dowodem staranności autorki w dążeniu do zachowania trafności pomiarów są następujące działania:

1. Przeprowadzenie wstępnych badań pilotażowych z udziałem 12 dzieci.
2. Dbłość o kryteria doboru próby badawczej (kwalifikacja do badań jedynie dzieci z prostą trisomią 21. chromosomu – dla zapewnienia takiego samego genetycznego podłoża zaburzeń rozwojowych u wszystkich badanych dzieci).
3. Działania służące wyeliminowaniu niekontrolowanych zmiennych, które mogłyby zaburzyć trafność wewnętrzną i zewnętrzną uzyskanych pomiarów zmiennych zależnych, np.: zrównoważenie wiekowe grup eksperymentalnej i kontrolnej, odpowiedni odstęp czasowy między pomiarami początkowym i końcowym, zapewnienie wszystkim osobom badanym zbliżonych warunków zewnętrznych, dbłość o to by badanie było prowadzone w różnym czasie.

Do analizy statystycznej wyników badań autorka wykorzystała program statistica Jamovi w wersji 2.25 stosując analizę wariancji Anova i testy post hoc. Przyjęty schemat postępowania uważam za poprawny metodologicznie.

Wyniki badania potwierdzają wszystkie sformułowane przez autorkę rozprawy hipotezy badawcze. Autorka rozprawy odnotowuje wpływ metody Castillo Moralesa® na napięcie mięśni mimicznych oraz na sprawność funkcjonalną kompleksu ustno-twarzowego, czego dowodzą wyniki badań neurologopedycznych i elektromiograficznych. Potwierdzony został również wpływ niniejszej metody na funkcjonowanie dzieci w wybranych sferach życia codziennego, co potwierdziły analizy wyników ankiet przeprowadzonych z udziałem matek

dzieci z obu grup. Potwierdzona została także hipoteza dotycząca wpływu prowadzonej terapii na jakość życia rodzin dzieci z trisomią 21. chromosomu. Tym samym Pani magister Gabriela Lorens zrealizowała cele badawcze sformułowane w części metodologicznej niniejszej rozprawy.

Warto odnotować, iż Doktorantka w przekonujący sposób uzasadnia aplikacyjną wartość przeprowadzonych badań. Słusznie wskazuje, iż badania nad efektywnością terapii Castillo Moralesa® ujmowanej holistycznie mają charakter pionierski i otwierają pole do dalszych badań dotyczących różnych aspektów funkcjonowania osób poddanych wskazanej terapii.

Podsumowując stwierdzam jednoznacznie, że przedłożona do oceny rozprawa doktorska Pani magister Gabrieli Lorens spełnia standardy określone stawiane przez Ustawę z dnia 14 marca 2003 r. o stopniach naukowych i tytule naukowym oraz o stopniach i tytule w zakresie sztuki (Dz.U. z 2017 r., poz. 1789) w zw. z art. 179 ust. 2 i 3 Ustawy z dnia 3 lipca 2018 r. i przepisy wprowadzające Ustawę – Prawo o szkolnictwie wyższym i nauce (Dz.U. z 2018 r. poz. 1669) i wnoszę o dopuszczenie Doktorantki do dalszych etapów przewodu doktorskiego. Uważam też, że praca zasługuje na publikację.

