



Gdańsk, 25.02.2019 r.

dr hab. Wioletta Radziwiłłowicz, prof. UG
Zakład Psychologii i Psychopatologii Rozwoju
SP Psychotraumatologia
Instytut Psychologii UG

Recenzja rozprawy doktorskiej mgr Agnieszki Trawickiej

pt. „Kliniczne i psychospołeczne korelaty jakości życia osób chorych na zespół Marfana”

Promotor: Prof. dr hab. n. med. Mikołaj Majkovicz

Promotor pomocniczy: dr Agata Zdun-Ryżewska

Rozprawa doktorska Pani mgr Agnieszki Trawickiej pt. „*Kliniczne i psychospołeczne korelaty jakości życia osób chorych na zespół Marfana*” mieści się w obszarze badawczym psychologii zdrowia, klinicznej i psychologii rodziny. Nadrzędnym celem przeprowadzonych przez Doktorantkę badań była ocena jakości życia, głównie uwarunkowanej stanem zdrowia oraz poszukiwanie związków między jakością życia i wieloma zmiennymi biopsychospołecznymi. Inspirację do podjęcia badań stanowiły sprzeczne wyniki, dodatkowo bardzo niewielu prac innych autorów, koncentrujących się na problematyce badawczej i grupie osób chorych, które zainteresowały Autorkę. Dlatego też badania własne o charakterze eksploracyjnym, prezentowane w rozprawie doktorskiej mają nie tylko znaczenie poznawcze, lecz także uzasadnienie teoretyczne, praktyczne i społeczne. Jak słusznie zauważa Doktorantka, niewątpliwie rozwój cywilizacyjno - społeczny powoduje wzrost zachorowań na różne choroby przewlekłe, jednak historia medycyny dowodzi, że znane były one ludzkości od wieków. W przypadku chorób rzadkich, uwarunkowanych genetycznie, jak np. zespole Marfana niektóre objawy prawdopodobnie sprzyjały rozwojowi wyjątkowego talentu, np. N. Paganiniego czy S. Rachmaninowa.

Dysertacja została podzielona na pięć głównych części. Jej struktura jest zgodna z tradycyjnym standardem przewidzianym dla opracowań empirycznych z zakresu psychologii i nauk o zdrowiu. Rozprawa doktorska składa się z: 1. części teoretycznej, (zawierającej opis obrazu medycznego i psychopatologicznego zespołu Marfana oraz opis jakości życia, również uwarunkowanej stanem zdrowia) oraz 2. bardziej obszernej części

empirycznej, zawierającej opis metodologii badań własnych, uzyskanych wyników oraz ich omówienie i wnioski.

W pierwszym rozdziale pracy Doktorantka przedstawiła bardzo interesującą historię badań nad zespołem Marfana, jego epidemiologię (wraz z zagadnieniem braku rozpoznania i nadrozpoznawalności), różnorodność obrazu klinicznego, zawartą w kryteriach Ghent, które były bardzo przydatne w empirycznej części rozprawy. W tym rozdziale opisano również genetyczne - wyjątkowo złożone - czynniki etiologiczne, a także kliniczne cechy zespołu Marfana: specyficzną budowę ciała i funkcjonowanie układu kostno-stawowego, oddechowego, narządu wzroku, ośrodkowego układu nerwowego oraz najsilniej związane z rokowaniem i zagrożeniem życia zmiany w obrębie układu sercowo-naczyniowego. Wspomniana różnorodność obrazu i specyfika przebiegu choroby niejako wymusza wielodyscyplinarną opiekę medyczną. Szczególnie istotne znaczenie mają tutaj zalecenia Europejskiego Towarzystwa Kardiologicznego, przy czym, jak zauważa Doktorantka, w Polsce pomimo opracowania w 2011 r. założeń Narodowego Planu dla Chorób Rzadkich z inicjatywy Krajowego Forum na rzecz terapii chorób rzadkich, jak dotąd Plan nie został finalnie opracowany i nie został przekazany do realizacji. Pierwszy rozdział kończy omówienie nielicznych badań nad występowaniem objawów psychopatologicznych (głównie psychotycznych i depresyjnych) oraz deficytów neuropsychologicznych u osób z zespołem Marfana. W przypadku dzieci i młodzieży diagnostyka dysfunkcji poznawczych z pewnością może mieć duże znaczenie dla ich szeroko pojętego funkcjonowania psychospołecznego, w tym w społeczności szkolnej.

W drugim rozdziale pracy Doktorantka przedstawiła pojęcie jakości życia, w tym jakości uwarunkowanej stanem zdrowia. Autorka w dynamiczny i interesujący sposób omówiła historię - poczynając od filozofii starożytnej, na polskich współczesnych badaczach kończąc - ujmowania bardzo złożonego i wielowymiarowego pojęcia jakości życia w naukach społecznych i medycznych, akcentując fiasko utożsamiania zdrowia z normą statystyczną. W tym kontekście duże znaczenie w analizie wyników badań własnych miało przyjęcie przez Doktorantkę jednego z podstawowych założeń medycyny i psychologii klinicznej oraz filozofii medycyny, że przedmiotem badań i oddziaływań powinno być subiektywne odczucie choroby i subiektywne odczucie zdrowia. Dlatego dalsza część omawianego rozdziału stanowi udana, precyzyjna próba usystematyzowania definicji oraz zakresu pojęciowego jakości życia uwarunkowanej stanem zdrowia (HRQOL), również u osób z zespołem Marfana. W ostatnim jego fragmencie opisano psychospołeczne korelaty jakości życia w tej grupie osób, tzn. doświadczanie objawów depresji i lęku, bólu, zmęczenia, niezadowolenie ze swego ciała, poczucie bycia stygmatyzowanym w szkole i pracy, status ubezpieczenia i zatrudnienia oraz wiele innych.

Podsumowując część teoretyczną dysertacji należy stwierdzić, że została ona napisana w sposób dość skrótowy, ale kompetentny i rzetelny, z odniesieniem do rodzimej i światowej literatury przedmiotu. Zarówno teorie, jak wyniki badań innych autorów, bardzo często przedstawione w przejrzystej formie w tabelach w dwóch pierwszych rozdziałach pracy, stanowiły tło teoretyczne dla interpretacji wyników badań własnych, prezentowanych w kolejnych rozdziałach części empirycznej. Ponadto dużą zaletą w badawczej postawie Autorki jest szacunek wobec teoretyków i prekursorów własnych badań, często polskich

badaczy, którzy dokonali przełomowych odkryć, lecz o których często nie chce pamiętać młode pokolenie naukowców.

Przejdę do oceny części empirycznej rozprawy. Na szczególną uwagę zasługuje bardzo staranny dobór osób do dwóch badanych grup – kryterialnej (klinicznej) oraz porównawczej (kontrolnej). Badanymi osobami byli pacjenci przyjmowani w Klinice Kardiologii Dziecięcej i Wad Wrodzonych Serca Uniwersyteckiego Centrum Klinicznego w Gdańsku. Podstawowymi kryteriami włączenia do grupy badanej był wiek powyżej 18 lat, diagnoza zespołu Marfana lub zespołu marfanoidalnego, zaś ocena medyczna została przeprowadzona przez lekarza. Kryterium wykluczenia stanowiły: współwystępowanie innych chorób somatycznych i zaburzeń świadomości, zaburzenia funkcji poznawczych, które uniemożliwiłyby rozumienie i wypełnienie kwestionariuszy. Za pomocą doboru wiążanego zrekrutowano grupę osób zdrowych, stanowiących grupę kontrolną. Badanie zostało przeprowadzone w dwóch lub więcej etapach, gdyż Autorce zależało na zminimalizowaniu obciążenia poznawczego oraz emocjonalnego pacjentów, co znowu świadczy o jej dojrzałości badawczej. Ponadto wiedza na temat epidemiologii, obrazu klinicznego i przebiegu omawianej choroby każe się domyślać, że dotarcie do pacjentów, którzy spełniali wszystkie kryteria włączające i wyłączające, było bardzo trudne. Zatem należy docenić duży trud Doktorantki w prawidłowym doborze osób badanych do grup w taki sposób, by można było dokonać późniejszych analiz i porównań międzygrupowych. Konsekwentnie, również medyczna oraz socjodemograficzna charakterystyka grup jest bardzo precyzyjna, choć w moim odczuciu powinna być przeniesiona z początku rozdziału 4. (Analiza i interpretacja wyników badań własnych; str. 62-66) do podrozdziału 3.3. (Osoby badane; str. 60).

Autorka dysertacji we właściwy sposób sformułowała trzy główne cele badawcze, uszczegółowione w siedmiu pytaniach badawczych. Pierwsze, podstawowe dotyczyło wszystkich badanych zmiennych psychologicznych i dotyczyło różnic pomiędzy grupą osób chorych na zespół Marfana a grupą osób zdrowych w zakresie: oceny jakości życia i satysfakcji z życia, odczuwanego stresu, nasilenia lęku jako stanu i jako cechy, strategii radzenia sobie ze stresem, prężności jako cechy osobowościowej, poczucia koherencji, wsparcia społecznego oraz funkcjonowania systemu rodzinnego. W celu osiągnięcia założonych celów badawczych Doktorantka posłużyła się metodą ilościową, techniką sondażu diagnostycznego i kwestionariuszową, stosując liczne, następujące narzędzia badawcze: ankietę własną, kwestionariusz oceny jakości życia SF-36, Skalę Satysfakcji z Życia SWLS, Skalę Odczuwanego Stresu PSS-10, Skale Oceny Rodziny SOR, Berlińskie Skale Wsparcia Społecznego BSSS, Kwestionariusz Orientacji Życiowej SOC-29, Kwestionariusz Orientacji Życiowej oraz Inwentarz Stanu i Cechy Lęku STAI.

Wyniki badań własnych zostały zaprezentowane w najbardziej obszernym rozdziale pracy. Wszystkie wyniki odnosiły się do kolejnego pytania badawczego, co ułatwiało recepcję treści. Autorka rozprawy precyzyjnie wyjaśniała, dlaczego jest stosowana każda z analiz statystycznych, począwszy od różnic międzygrupowych, analiz korelacyjnych, po złożone analizy regresji wielorakiej oraz analizy mediacyjne (makro PROCESS autorstwa Hayes). Autorka zaprezentowała zatem dużą biegłość w doborze metody

statystycznej do analizowanej problematyki, wskazującą na pełną znajomość możliwości stosowanych narzędzi analizy statystycznej.

Uzyskane wyniki badań własnych są bardzo interesujące, czasami zaskakujące. Przede wszystkim w obrębie badanych zmiennych wystąpiło mniej różnic międzygrupowych niż można byłoby przypuszczać na podstawie dostępnej wiedzy na temat fizycznego i emocjonalno-społecznego funkcjonowania osób z ciężkimi chorobami przewlekłymi. Większość zmiennych mieściła się w granicach prób normalizacyjnych. Tutaj jednym z najważniejszych przykładów może być prężność psychiczna (traktowana również jako mechanizm samoregulacji), poczucie koherencji, nasilenie objawów lęku i doświadczanego stresu, wsparcie społeczne i satysfakcja z życia. Z kolei oceniana jakość życia różnicowała badane grupy jedynie pod względem funkcjonowania fizycznego, będącego jej składową. Dlatego jest dość logiczne, że deklarowane przez osoby z zespołem Marfana problemy kardiologiczne, ortopedyczne (wraz z odczuwanym bólem) i zmniejszona tolerancja wysiłku były silnie związane z wieloma obszarami jakości życia (zdrowiem fizycznym i psychicznym, witalnością, ograniczeniami w pełnieniu ról, funkcjonowaniem społecznym itd.). Natomiast zaskakujący i interesująco zinterpretowany związek wystąpił między wyższą jakością życia w obszarze witalności i zdrowia psychicznego a posiadaniem dysmorficznych cech twarzy. Warto zbadania jest założenie, że widoczne objawy choroby pozwalają na zdystansowanie się wobec objawów, które stanowią większe źródło lęku.

Podobnie, jedno z najbardziej interesujących uzyskanych wyników dotyczą oceny funkcjonowania systemu rodzinnego. Zawarte w rozprawie wyniki badań są pod względem pionierskie w kraju i na świecie. Możliwe jednak, że charakterystykę systemu rodzinnego jako nie zrównoważonego, występującego w rodzinach osób z zespołem Marfana, można byłoby w pewien sposób wzbogacić. Otóż mam na myśli wyodrębnienie osób z zespołem Marfana, których funkcjonowanie rodzin jest zbliżone (przyjmijmy umownie – bardziej prawidłowe) do funkcjonowania rodzin osób z grupy kontrolnej i w konsekwencji przeprowadzenie porównania wewnątrzgrupowego (por. ryc. 12, str. 81). Jeśli byłoby to możliwe w bardziej licznej grupie badanych, wówczas można byłoby porównać w taki sposób wyodrębnione podgrupy pod względem wszystkich innych badanych zmiennych, analizować (specyficzne bądź wspólne) korelaty czy predyktory jakości życia. Nie jest to oczywiście uwaga krytyczna, tylko pewien dylemat i ciekawość poznawcza, gdyż w grupie rodzin osób z zespołem Marfana mogą znaleźć się te podobne do rodzin bez doświadczenia choroby zagrażającej życiu, jak również te, w których owo „niezrównoważenie” systemu spełnia tak ważne funkcje regulacyjne, że wręcz dzięki niemu system istnieje, nie rozpada się itd. Wydaje się to dlatego ważne, gdyż ok. 60% badanych w grupie klinicznej pozostawało w stałym bliskim związku, 15 osób odziedziczyło zespół Marfana, 13 osób wie o tym, że zespół Marfana był przyczyną śmierci kogoś z rodziny, 19 osób ma poszerzoną aortę lub wynik poszerzenia plasuje się w górnej granicy normy, zaś 13 osób zostało już zoperowanych lub w niedalekiej przyszłości będą zakwalifikowani do zabiegu kardiochirurgicznego (tab. IX, str. 64). W zależności od siły międzypokoleniowego przekazu życia psychicznego (również lęku), ciężkości choroby, jej przebiegu i możliwego zagrożenia życia potrzeby osób chorych, ustalenie przez nie optymalnej bliskości / dystansu

mogą być przecież wysoce zindywidualizowane. Kontynuując, dlatego ze względu na różne „nieoczywistości” funkcjonowania osób z zespołem Marfana oraz ich rodzin należy docenić to, że Doktorantka odbiega od sztywnych schematów i uznaje także adaptacyjną - choćby nawet chwilową - rolę unikalnych strategii radzenia sobie ze stresem.

Ogólnie rzecz ujmując, dyskusja wyników badań własnych jest kompetentna, logiczna, ma charakter dynamicznej polemiki. Każdy z uzyskanych wyników został omówiony, czasami porównany z jedynymi dostępnymi danymi z badań, np. osób z różnorodnymi chorobami układu krążenia czy cukrzycą.

Przechodząc do formalnej oceny rozprawy, oceniam ją trochę niżej niż stronę merytoryczną. Jest w niej dość dużo błędów interpunkcyjnych, deklinacyjnych czy „technicznych”, statystycznych sformułowań (np. poziom nasilenia, nasilenie poziomu, średnie nasilenie mechanizmów radzenia sobie, wynik w skali – w tym przypadku powinno się używać nazw badanych zmiennych), których Doktorantka stara się dość skutecznie unikać w dyskusji wyników badań własnych oraz wnioskach.

Autorski projekt badawczy bazuje - co oczywiste - na dotychczasowych osiągnięciach innych autorów, został przygotowany z dużym namysłem w oparciu o wnikliwą i krytyczną analizę wyników badań, opisywanych ze znanstwem, jednocześnie jakże nielicznych przeprowadzonych wśród osób chorych na zespół Marfana. Bardzo dobra orientacja w rzeczywistości badawczej oraz teoretyczne ugruntowanie, zaplanowanie procedury badawczej, wybór trafnych narzędzi badawczych oraz wnikliwych analiz statystycznych składają się na spójny projekt badań własnych, w przeprowadzeniu których niewątpliwie bardzo pomocni byli lekarze specjaliści. Autorka również przedstawiła w kilku miejscach dysertacji, zarówno w jej części teoretycznej, jak w oparciu o wyniki badań własnych, spójny, wręcz domagający się scalenia w jednym miejscu model oddziaływań terapeutycznych wobec osób chorych na zespół Marfana, jak ich rodzin. Badania i praca terapeutyczna nad mechanizmami adaptacji do choroby, wzmocnieniem poczucia bezpieczeństwa, prężności, optymizmu, doświadczaniem wzrostu potraumatycznego mogą z powodzeniem wyznaczać kierunek dalszej aktywności zawodowej i poszukiwań naukowych, czego Doktorantka ma świadomość.

Podjęcie badań własnych przez Doktorantkę ma duże znaczenie poznawcze, gdyż w bardzo umiejętny sposób scalała interesujące ją dziedziny nauki i zrealizowała ambitne zamierzenie badawcze, łącząc wiele powiązanych ze sobą zmiennych, które w dotychczas przeprowadzonych badaniach były analizowane w rozłączny sposób. Ze względu na wysokie walory pracy, jej znaczenie teoriiotwórcze i znaczący wkład w rozwój praktyki psychologicznej wnoszę do Wysokiej Rady Wydziału Nauk o Zdrowiu Gdańskiego Uniwersytetu Medycznego o **wyróżnienie** rozprawy.

Podsumowując, stwierdzam, że przedstawiona rozprawa doktorska Pani mgr Agnieszki Trawickiej pt. „*Kliniczne i psychospołeczne korelaty jakości życia osób chorych na zespół Marfana*” odpowiada warunkom określonym w art. 13 Ustawy z dnia 14 marca 2003 r. o stopniach naukowych i tytule naukowym, uzasadnia nadanie Jej stopnia doktora nauk o zdrowiu i dalszy udział w przewodzie doktorskim.

W. Radwiłowicz