

prof. zw. dr hab. Mariola Bidzan
Instytut Psychologii UG

Gdańsk, 2 kwietnia 2018

RECENZJA ROZPRAWY DOKTORSKIEJ

mgra Ernesta Tyburskiego

FUNKCJE WYKONAWCZE U OSÓB CHORYCH NA STWARDNIENIE ROZSIANE.

ANALIZA NEUROPSYCHOLOGICZNA

napisanej pod kierunkiem dra hab. Andrzeja Potemkowskiego, prof. US
oraz promotora pomocniczego: dr Ewy Zawadzkiej

Diagnoza SM zawsze wzbudza u osób diagnozowanych w kierunku tego rozpoznania i ich bliskich lęk i stres, nie tylko ze względu na objawy choroby, ale i funkcjonujący stereotyp SM jako choroby ciężkiej, prowadzącej zarówno do znacznej niepełnosprawności fizycznej (w domyśle, niemal zawsze perspektywa wózka inwalidzkiego), jak i psychicznej oraz do śmierci.

Poza objawami, dotyczącymi przede wszystkim narządu ruchu, w niektórych badaniach wykazywano deficyty funkcji wykonawczych oraz pamięci operacyjnej w SM, i chociaż nadal nie do końca wyjaśniono, które aspekty tych procesów ulegają największym zakłóceniom, sama świadomość możliwości istnienia deficytów i w tym zakresie znacznie obciąża funkcjonowanie psychospołeczne chorych.

Pomimo tego, że w diagnozowaniu i leczeniu pacjentów z SM stosuje się cały wachlarz metod, zarówno farmakologicznych, operacyjnych, jak i rehabilitacyjnych (w tym neuropsychologicznych), potrzebne są badania poszukujące nowych propozycji oddziaływań, które mogą przełożyć się na lepszą diagnostykę, a tym samym większe efekty neurorehabilitacyjne, nikt bowiem nie ma wątpliwości, że rehabilitacja neuropsychologiczna wspomaga leczenie farmakologiczne, fizjoterapeutyczne itp. Lektura rozprawy doktorskiej dowodzi, że dla Doktoranta cała złożona problematyka SM w jej biopsychospołecznym, procesowym wymiarze, jest bardzo bliska. Ponadto Badacz zajmując się konkretnym aspektem funkcjonowania chorych z SM, tj. przede wszystkim funkcjami wykonawczymi, zdaje sobie sprawę z braku ostatecznych ustaleń badawczych w literaturze przedmiotu, które deficyty funkcji wykonawczych oraz pamięci operacyjnej ulegają największym zakłóceniom, jak również z niepełnej wiedzy o związku między wymienionymi funkcjami. Mgr Ernest Tyburski podkreśla także, że brakuje danych na temat charakterystyki profilowej określającej specyfikę deficytów oraz określenia w sposób pełny roli czynników klinicznych mogących modyfikować poziom wymienionych funkcji.

Dysertacja Pana mgra Ernesta Tyburskiego, którą mam przyjemność recenzować, wychodzi więc naprzeciw trudnym wyzwaniom. A ponieważ w takim ujęciu podejmowano nieliczne badania jest pracą oryginalną, podejmującą istotną i nader aktualną problematykę.

Rozprawa doktorska ma układ klasyczny, składa się z siedmiu rozdziałów, czterech teoretycznych i trzech empirycznych i liczy wraz ze *Wstępem*, *Streszczeniem w jęz. polskim i angielskim*, *Bibliografią*, *Spisem tabel*, *Spisem rysunków*, *Anekssem* oraz *Streszczeniem w języku polskim i angielskim* 305 stron.

Przyjęcie takiej struktury pracy jest zgodne z wymaganiami, stąd od strony formalnej recenzowana rozprawa spełnia w pełni standardy stawiane pracom doktorskim o charakterze empirycznym.

Tytuł pracy w pełni odpowiada treściom w niej zawartym, jest stylistycznie oraz metodologicznie prawidłowy, daje potencjalnemu czytelnikowi wskazówkę, jakiego obszaru eksploracji naukowej dotyczy dysertacja.

Pracę rozpoczyna *Wykaz użytych skrótów*, bardzo potrzebnych, jednocześnie jest to wykaz długi (3,5 str.), stąd niemożliwe do zapamiętania są te skróty bez odwoływania

się do nich w trakcie lektury pracy. Dobrze więc, że w tekście rozprawy Autor przytaczając po raz pierwszy dany skrót podaje jednocześnie jego pełną nazwę. Bardzo ułatwia to odbiór treści.

Wstęp (2 strony) poza krótkim wprowadzeniem w problematykę badawczą przedstawia w sposób skrótowy, czego czytelnik może spodziewać się w pracy. We *Wstępie* wkradł się drobny błąd dotyczący liczby rozdziałów (Autor podaje 6, jest 7).

Lektura cz. teoretycznej pracy nie budzi zastrzeżeń.

Autor, na podstawie piśmiennictwa w rozdziale pierwszym podjął próbę określenia istoty funkcji wykonawczych i pamięci operacyjnej z punktu widzenia neuropsychologii klinicznej, a także przedstawił poglądy na temat związku między tymi procesami umysłowymi. W rozdziale drugim omówił mózgowe podłoże opisywanych funkcji, z uwzględnieniem najistotniejszych obszarów i struktur regulujących ich przebieg.

W trzecim rozdziale części teoretycznej opisano obraz kliniczny choroby oraz przedstawiono stan wiedzy o zaburzeniach wykonawczych na podstawie wyników systematycznego przeglądu badań, a także starano się określić rolę mechanizmów mózgowych prowadzących do ich wystąpienia.

W czwartym rozdziale scharakteryzowano poszczególne czynniki kliniczne kształtujące deficyty wykonawcze i zaburzenia pamięci operacyjnej oraz metody leczenia farmakologicznego i terapię neuropsychologiczną, które są stosowane w celu zmniejszenia wymienionych dysfunkcji

Treść tych rozdziałów tworzy spójną całość.

Wśród istotnych walorów cz. teoretycznej rozprawy należy zwrócić uwagę na:

- uwzględnienie zagadnienia, jakim jest specyfika funkcji wykonawczych oraz nieprawidłowości w ich zakresie u chorych z SM,
- dogłębną analizę psychologicznej organizacji funkcji wykonawczych, ze szczególnym odniesieniem do SM, udaną próbę określenia istoty funkcji wykonawczych w tej grupie chorych,
- bardzo dobrą charakterystykę wspólnego mózgowego podłoża pamięci operacyjnej i funkcji wykonawczych, szczególnie w kontekście trzech uniwersalnych sieci

- mózgowych, tzn. centralnej sieci wykonawczej, sieci spoczynkowej oraz sieci istotności,
- ujednoczenie sposobów rozumienia opisywanych procesów, co nie było łatwe ze względu na różnorodność poglądów i koncepcji nt. temat,
 - znakomity przegląd prac poświęconych specyficie zaburzeń funkcji wykonawczych w SM,
 - opisanie roli mechanizmów mózgowych prowadzących do występowania zakłóceń procesów wykonawczych i pamięci operacyjnej, a także udziału tych mechanizmów, które kompensują deficyty w ich zakresie,
 - wnikliwe, a jednocześnie syntetyczne i analityczne ujęcie zagadnienia, przejrzysty, komunikatywny język,
 - powoływanie się na bogate pod względem liczebności źródła, zarówno na polskie jak i zagraniczne publikacje, w tym klasyczne, jak i najnowsze.

Kolejne rozdziały pracy obejmują cz. metodologiczną, w której Autor przedstawił *Problematykę i metodologię badań własnych* (rozdz. 5), *Analizę wyników badań własnych* (rozdz. 6), *Dyskusję wyników* (rozdz. 7).

Celem podjętych przez Autora badań jest *charakterystyka funkcji wykonawczych (w tym pamięci operacyjnej) u osób z SM, jak również określenie czynników mogących modyfikować ich poziom*. Zgodnie z tak sformułowanym celem pracy Badacz sformułował 5 pytań badawczych:

1. *Czy osoby z SM o przebiegu rzutowo-remisyjnym, pierwotnie-postępującym oraz wtórnie-postępującym różnią się poziomem funkcji wykonawczych od osób bez patologii mózgowej?*
2. *Czy osoby z SM o przebiegu rzutowo-remisyjnym, pierwotnie-postępującym oraz wtórnie-postępującym różnią się poziomem pamięci operacyjnej od osób bez patologii mózgowej?*
3. *Czy w grupach osób o różnym przebiegu SM istnieje zależność między pamięcią operacyjną a funkcjami wykonawczymi?*
4. *Jakie są profile funkcjonowania osób o różnym przebiegu SM w zakresie funkcji wykonawczych i pamięci operacyjnej?*
5. *Czy w grupach osób o różnym przebiegu SM istnieje zależność między wybranymi czynnikami klinicznymi (czas trwania choroby i poziom niepełno-sprawności ruchowej) a poziomem funkcji wykonawczych i pamięci operacyjnej?*

oraz odpowiadających im hipotez, merytorycznie uzasadnionych.

Szkoda, że Autor nie pokusił się o postawienie kierunkowych hipotez, tylko podszedł asekuracyjnie do problemu, formułując wszelkie możliwe do weryfikowania hipotezy. Jednak należy podkreślić, że zarówno pytania jak i hipotezy badawcze sformułowane są prawidłowo. Z drugiej strony, penetracja bogatej literatury, odnoszącej się zarówno do koncepcji i modeli teoretycznych oraz wyników dotychczasowych badań dawała szansę na wysunięcie kierunkowych hipotez.

Ponadto, w rozdziale 5. zostały przedstawione zmienne badawcze, charakterystyka osób badanych, procedura i organizacja badań, opis zastosowanych metod oraz schemat statystycznej analizy danych.

Na przeprowadzone badania uzyskano zgodę Komisji Bioetycznej przy Okręgowej Izbie Lekarskiej w Szczecinie (OIL-Sz/KB/452/05/2011).

W szóstym rozdziale zawarto analizę wyników badań własnych. W ostatnim, 7. rozdziale, przedstawiono natomiast próbę interpretacji otrzymanych rezultatów.

Co cenne, mgr Ernest Tyburski wskazał także na ograniczenia podjętych badań i przedstawił implikacje praktyczne wynikające z uzyskanych wyników.

Badaniami objęto 193 osób (129 kobiet i 64 mężczyzn) z diagnozą SM, przy czym w ostatecznej analizie poddano rezultaty badań 151 osób (102 kobiet i 49 mężczyzn), tworzących trzy grupy kliniczne, obejmujące:

1. pacjentów z rzutowo-remisyjnym przebiegiem SM (n=30);
2. pacjentów z pierwotnie-postępującym przebiegiem SM (n=30);
3. pacjentów z wtórnie-postępującym przebiegiem SM (n=31).

Dodatkowo, utworzono dwie grupy kontrolne, składające się z osób zdrowych, tj.

1. grupę kontrolną osób młodszych w wieku 20 do 40 lat (n=30), bez doświadczenia w przeszłości i aktualnie jakiegokolwiek choroby neurologicznej i psychicznej;
2. grupę kontrolną osób starszych w wieku od 40 do 60 lat (n= 30) bez doświadczenia w przeszłości i aktualnie jakiegokolwiek choroby neurologicznej i psychicznej.

W przypadku tej drugiej grupy kontrolnej dość niezręcznie Autor napisał *osób starszych*, jednak zważywszy na młody wiek Doktoranta, osoby w wieku 40 do 60 lat mogą w jego ocenie wydawać się starsze; biorąc pod uwagę fazy rozwojowe człowieka, to wiek ten odpowiada okresowi średniej i późnej dorosłości. Warto więc doprecyzować, np. starsze niż... lub może podać konkretną fazę rozwoju osób w danej grupie.

Bardzo dokładnie doprecyzowano kryteria włączające i wyłączające. Każdorazowo rozpoznanie zostało potwierdzone przez lekarza neurologa na podstawie badania klinicznego obejmującego wywiad, ocenę stanu neurologicznego z uwzględnieniem wyników badań dodatkowych (rezonansu magnetycznego, tomografii komputerowej lub potencjałów wywołanych), analizę płynu mózgowo-rdzeniowego oraz badania okulistycznego opartego na kryteriach rozpoznania Polmana i in. (2005).

U wszystkich osób badanych kontrolowano: płeć, wiek, poziom wykształcenia, ręczność, poziom ogólnego funkcjonowania poznawczego oraz poziom depresyjności. W dwóch grupach klinicznych (obejmujących pacjentów z pierwotnie-postępującym przebiegiem SM oraz pacjentów z wtórnie-postępującym przebiegiem choroby) dodatkowo kontrolowano również poziom niepełnosprawności ruchowej w celu możliwie jak największego ujednolicenia badanych grup.

Badanie realizowane zostało w naturalnych warunkach leczenia i funkcjonowania pacjentów, tj. w Centrum Rehabilitacji dla Osób Chorych na Stwardnienie Rozsiane w Bornym Sulinowie oraz w Centrum Medycznym EuroMedis w Szczecinie.

Poza analizą dokumentacji medycznej i autorską ankietą socjodemograficzną zastosowano dobrze znane, trafne i rzetelne narzędzia badawcze:

1. metody badawcze, nazwane przez Autora wstępnymi, służące do pomiaru zmiennych kontrolowanych i wyjaśniających, tj. Krótką Skalę Oceny Stanu Umysłowego (*Mini-Mental State Examination*, MMSE), Skalę Depresji Becka (BDI, Beck, Ward, Mendelson, Mock, Erbaugh, 1961), Rozszerzoną Skalę Niewydolności Ruchowej (EDSS, Kurtzke, 1983);
2. oraz metody właściwe, pomocne w ocenie zmiennych wyjaśnianych, Do pomiaru trzech aspektów funkcji wykonawczych, tzn. werbalnej i niewerbalnej elastyczności umysłowej oraz hamowania poznawczego dominującej reakcji werbalnej zastosowano dwie próby oparte na Teście Fluencji Słownej, Test Łączenia Punktów oraz próby oparte na Teście Nazw i Kolorów Stroopa. Do

diagnozy dwóch aspektów pamięci operacyjnej, tzn. werbalnego i niewerbalnego, wykorzystano Test Powtarzanie Cyfr i Test Pamięci Wzrokowo-Ruchowej.

W mojej ocenie narzędzia te są bardzo dobrze dobrane. I pomimo dużej liczby, są krótkie, przyjazne dla pacjenta.

Zastosowano staranną, odpowiednią do celu pracy, analizę statystyczną, w tym złożone statystyki do weryfikacji różnic pomiędzy trzema grupami klinicznymi, takie jak analiza wariancji F, czy analiza wariancji rang H Kruskala-Walisa.

Istotne walory części empirycznej:

- oparcie badań na uzupełniających się modelach teoretycznych funkcji wykonawczych (Izack, 1995; Jodzio, 2008) oraz koncepcji strukturalnej Baddeleya i Hitcha (1974),
- badanie w bardzo ekologicznej formie,
- innowacyjny charakter badań,
- duża liczba badanych,
- bardzo staranne kryteria włączające i wyłączające,
- ocena stanu zdrowia i kwalifikacja do badań przez lekarza neurologa,
- wykorzystanie wielu adekwatnych narzędzi badawczych,
- bardzo dobre opracowanie statystyczne wyników,
- doskonała, wnikliwa, czytelna prezentacja wyników badań,
- wnikliwe, krytyczne omówienie wyników badań,
- wartościowe wnioski końcowe, przede wszystkim 3-5, wskazujące, iż:

1. *U pacjentów z trzech grup klinicznych wykazano powiązania między pamięcią operacyjną i funkcjami wykonawczymi. **Wzór wykazanych relacji był jednak niespecyficzny i zróżnicowany w każdej z badanej grup** (podkreślenie własne). Związki wystąpiły zarówno między werbalnym, jak i niewerbalnym rodzajem pamięci operacyjnej oraz werbalną i niewerbalną elastycznością umysłową oraz hamowaniem poznawczym.*

2. *U chorych na SM występuje znaczna zmienność, zarówno o charakterze interindywidualnym, jak i intraindywidualnym, w zakresie zaburzeń funkcji wykonawczych i pamięci operacyjnej. We wszystkich trzech grupach klinicznych zakłócenia badanych procesów umysłowych występowały*

stosunkowo często, jednak obraz ich częstości wyglądał nieco inaczej w każdej grupie (podkreślenie własne). Ponadto objawy zaburzeń funkcji wykonawczych i pamięci operacyjnej u chorych przyjmowały niekiedy postać wybiórczą, innym zaś razem bardziej uogólnioną. Zatem stwierdzone objawy, będące konsekwencją rozсіяnego uszkodzenia mózgu, można było określić jako heterogeniczne.

3. *Istnieją niespecyficzne powiązania między czynnikami klinicznymi a poziomem funkcji wykonawczych oraz pamięci operacyjnej w trzech grupach klinicznych. Czas od diagnozy oraz niepełnosprawność ruchowa okazały się istotnymi predyktorami w zakresie sprawności niektórych aspektów badanych procesów umysłowych we wszystkich trzech grupach klinicznych.*

Literatura części empirycznej pracy skłania również do sformułowania jednej uwagi odnoszącej się do hipotez badawczych, i propozycji, co sygnalizowałam już wcześniej, a która może być przydatna w dalszym rozwoju Doktoranta:

- sugerowałabym bardziej odważne formułowanie hipotez kierunkowych.

Oceniając całościowo rozprawę doktorską pragnę podkreślić przede wszystkim jej mocne strony (gdyż tych słabych właściwie brak, a pojedyncze mają charakter polemiczny), czyli:

- wagę podjętych problemów;
- brak zastrzeżeń natury metodologicznej co do przeprowadzonych badań, które zostały zaplanowane, zrealizowane i zanalizowane wzorcowo;
- dotarcie do imponującej liczby piśmiennictwa, liczącego aż 655 (!) pozycji
- eksperyment w bardzo ekologicznej formie;
- innowacyjny charakter badań;
- wnikliwość psychologiczną wywołu;
- uporządkowaną strukturę, bardzo dobre wprowadzenia do każdego rozdziału, podsumowania itp.;
- czytelnie przedstawione wyniki badań,

- pokazanie profili zróżnicowania indywidualnego oraz u osób z odmiennymi postaciami SM w zakresie funkcji wykonawczych i pamięci,
- określenie czynników klinicznych mogących modyfikować poziom wymienionych funkcji.

Uzyskane wyniki, poddane badawczej analizie, w pełni wypełniają oczekiwania recenzenta odnośnie do kwalifikacji poznawczej i poziomu rozprawy naukowej, w tym wypadku doktorskiej, pozwalając na bardzo wysoką jej ocenę.

Całość rozprawy, w tym dyskusja wyników, a także ograniczenia badań i implikacje na przyszłość, potwierdzają, że Doktorant posiada dużą wiedzę interdyscyplinarną, pozwalającą na bardzo szczegółową analizę uzyskanych wyników, dowodzi krytycznego sposobu myślenia Autora.

Opinie formułowane przez Doktoranta zawsze znajdują potwierdzenie w uzyskanych wynikach własnych, bądź w danych z literatury. Wyniki, co niezmiernie cenne, mgr Ernest Tyburski przełożył na szczegółowe propozycje oddziaływań praktycznych, odnoszących się do procesu diagnostycznego pacjentów z SM.

Aplikacyjność uzyskanych wyników, w mojej ocenie, zwiększa wartość recenzowanej pracy.

Biorąc powyższe pod uwagę, stwierdzam, że przedłożona mi do recenzji dysertacja Pana mgra ERNESTA TYBURSKIEGO *Funkcje wykonawcze u osób chorych na stwardnienie rozsiane. Analiza neuropsychologiczna*, w pełni spełnia wymogi stawiane pracom doktorskim, zgodnie z *Ustawą o tytułach i stopniach naukowych* z dnia 14 marca 2003 r., art. 31 (Dz. U. nr 65 poz. 595 z późn. zm.).

W związku z powyższym wnoszę do Wysokiej Rady Wydziału Pedagogiki i Psychologii Uniwersytetu Marii Curie-Skłodowskiej w Lublinie o dopuszczenie mgra Ernesta Tyburskiego do dalszych etapów postępowania doktorskiego.

Ponadto ze względu na przedstawione w recenzji walory pracy, jej duży wkład do teorii i praktyki neuropsychologicznej uprzejmie proszę o rozważenie wyróżnienia tej dysertacji.

Mariola Biłozan