

dnia 30.09.2019 r. J. Ambrosej

Prof. dr hab. n. med. Maciej Kaczmarek

15-295 Białystok, ul. Szpitalna 35A m. 32

tel. +48 85 742 79 96, kom. +48 604 400 662

e-mail: maciej.kaczmarek@umb.edu.pl maciej.g.kaczmarek@gmail.com

Białystok, 30. 09. 2019.

W. Pani

Prof. dr hab. n. med. Bożena Dobrzycka

Dziekan Wydziału Nauk o Zdrowiu

Uniwersytet Medyczny w Białymstoku

Recenzja rozprawy doktorskiej mgr Barbary Szukiel pt. „**Ocena zaburzeń mowy i komunikacji dzieci z autyzmem w wieku przedszkolnym i szkolnym**”, wydana w związku z uchwałą Rady Wydziału Nauk o Zdrowiu Uniwersytetu Medycznego w Białymstoku z dnia 12. 09. 2019.

I. Wprowadzenie

Niniejsza praca doktorska jest podsumowaniem doświadczeń, zdobytych przez doktorantkę podczas wieloletniej, codziennej pracy logopedycznej z dziećmi autystycznymi. Jest także wynikiem 2,5 letnich badań autorki, dotyczących dwu istotnych objawów autyzmu wczesnodziecięcego, jakim są: zaburzenia mowy oraz nieprawidłowości w komunikacji (werbalnej i pozawerbalnej) dzieci z ASD ze środowiskiem, w którym żyją na co dzień.

Opinię taką formułuję po zapoznaniu się z treścią **rozdziału Wstęp** (str. 5-35 pracy doktorskiej), w którym doktorantka dokumentuje swoją bogatą i aktualną wiedzę o autyzmie, medycznej jednostce nozologicznej, która w praktyce klinicznej (ICD-11) oraz w psychologii rozwojowej (DSM-V) funkcjonuje od roku 1967 pod nazwą „całościowe spectrum zaburzeń autystycznych (Autistic Spectrum Disorders, ASD).

Z poszczególnych podrozdziałów **Wstępu** czytelnik dowiadyuje się o nowym spojrzeniu na objawy osiowe autyzmu i modyfikację sposobu ich oceny - z dotychczas obowiązującej triady diagnostycznej (stereotypowe wzorce zachowań; nieprawidłowości w rozwoju komunikacji; zaburzenia w tworzeniu relacji społecznych) – na ocenę dwu obszarów zaburzeń, dotyczących: deficytów społeczno-komunikacyjnych oraz ograniczonych zainteresowań i powtarzanych zachowań.

Omówiony szczegółowo we Wstępie „rozwój mowy” pozwala lepiej rozumieć zaburzenia, występujące u dzieci autystycznych w sferze werbalnej (3 kategorie zaburzeń), które prowadzą do braku mowy lub jej specyficznego charakteru, co w rezultacie ogranicza

wzajemne komunikowanie się chorego dziecka z otoczeniem. Równie istotna jest szczegółowa charakterystyka zaburzeń w komunikacji niewerbalnej.

Niezwykle cennym szkoleniowo jest podrozdział 1.3 Wstępu, zatytułowany **Alternatywne i wspomagające metody komunikacji** (wsparty 5. fotografiami), poświęcony narzędziom wykorzystywanym przez osoby z ASD, pozbawione zdolności mówienia lub tym, których rozwój mowy nie pozwala na swobodne komunikowanie się z otoczeniem.

Podrozdział 1.4 Wstępu autorka poświęca omówieniu diagnozy logopedycznej, która ma miejsce w Poradni psychologiczno-pedagogicznej i polega na dokonaniu zespołowej wieloaspektowej oceny stanu dziecka z autyzmem, z użyciem testów logopedycznych (ocena funkcjonowania społeczno-komunikacyjnego) oraz narzędzi określających behawioralne wskaźniki nasilenia ASD.

II. Cel badawczy główny (str. 16) dotyczy oceny zaburzeń mowy i komunikacji dzieci z autyzmem w wieku przedszkolnym i szkolnym.

Cel główny został zrealizowany przy pomocy 5 elementów szczegółowych, obejmujących:

- analizę porównawczą ilościowego i jakościowego poziomu umiejętności językowych i komunikacyjnych dzieci z autyzmem, w porównaniu do grupy zdrowych rówieśników
- określenie obszarów deficytowych dotyczących rozwoju systemu językowego, stopnia nasilenia i charakteru zaburzeń językowych
- porównanie pragmatycznych umiejętności w zakresie komunikacji w podgrupach dzieci: korzystających i niekorzystających z systemów alternatywnej i wspomaganej komunikacji,
- ocenę tych zaburzeń w zależności od wieku postawienia diagnozy ASD i wieku rozpoczęcia terapii logopedycznej.

III. Materiał i Metody

Badania logopedyczne obejmowały grupę 140 dzieci z autyzmem w wieku przedszkolnym i szkolnym (od 4 do 9 lat). Stanowili ją pacjenci Kliniki Neurologii i Rehabilitacji Dziecięcej UDSK, dzieci objęte opieką Fundacji „Nadzieja i Szansa” oraz Stowarzyszenia „BARWA” w Białymstoku. Grupę porównawczą stanowiło 90 dzieci zdrowych, w podobnym wieku. Doktorantka zastosowała odpowiednie kryteria „włączenia i wyłączenia” do badanych grup (grupa dzieci z autyzmem i grupa kontrolna).

Na wykonanie zaplanowanych badań uzyskano zgodę Komisji Bioetycznej Uniwersytetu Medycznego w Białymstoku, z dnia 25. 05. 2016.

Metodologia badania logopedycznego została opisana szczegółowo w podrozdziale 3.2 (na stronach 38-42), a wyniki poddano analizie statystycznej (podrozdział 3.3, str.42-45).

IV. Wyniki (str. 46-94)

Uzyskane wyniki badań zostały opisane na 58 stronach maszynopisu i przedstawione graficznie na 42 rycinach oraz 74 zestawieniach tabelarycznych. Zarówno opis, jak i dokumentacja (tabele, kolorowe ryciny), są czytelne i starannie wykonane, co dowodzi ogromu pracy, włożonej przez doktorantkę w usystematyzowanie, opracowanie, przejrzystość wyników.

Wielką liczbę danych z przeprowadzonych badań, zamieszczonych w pracy doktorskiej, recenzent skomentował w oparciu o schemat badania logopedycznego i cele szczegółowe pracy badawczej, wiążące się z głównym celem pracy.

1. Dane z wywiadu rodzinnego i osobniczego dziecka z autyzmem.

- Nie stwierdzono różnicy w rodzaju i częstości występowania chorób u matek w trakcie ciąży (cukrzycy, anemii, cholestazy). Stosowanie używek/leków, palenie papierosów, czas trwania ciąży, odsetek cięć cesarskich, były podobne u matek dzieci z autyzmem i dzieci zdrowych.
- Punkcja Apgar po urodzeniu dzieci z autyzmem i zdrowych była podobna; podobny odsetek w obydwu grupach dotyczył karmienia naturalnego.
- Problemy z odruchem ssania **miało w grupie autystycznej 20,0% dzieci, tj. o 6,0% więcej** w porównaniu do dzieci zdrowych, **a problemy z żuciem pokarmów 7,4%.**
- Odsetek nawracających infekcji górnych dróg oddechowych był wyższy **w grupie dzieci autystycznych i wynosił 24,3% vs 15,6% u dzieci zdrowych; 7,1% z grupy ASD i 3,3% z grupy kontrolnej miało indywidualny kalendarz szczepień.**
- **W grupie dzieci z autyzmem zaburzenia całościowe występowały w najbliższej rodzinie częściej (7,1%), niż w grupie kontrolnej (2,2%);** spośród 140 badanych dzieci autystycznych występowanie autyzmu potwierdzono w 10 rodzinach.
- Dzieci z ASD rozpoczynały terapię zaburzeń mowy **w średnim wieku 3,4 lat, tj. o rok wcześniej** niż rówieśnicy zdrowi, wymagający takiej terapii.

2. Określenie głównych obszarów deficytowych w zakresie rozwoju systemu językowego dzieci z autyzmem oraz porównanie ilościowego i jakościowego poziomu umiejętności językowych i komunikacyjnych ze zdrowymi rówieśnikami.

a) W zakresie rozwoju mowy

- Począwszy od 8. miesiąca życia do ukończenia 1. roku życia, grupa dzieci z autyzmem demonstrowała opóźnienie w wokalizacji sylabami oraz rozumieniu kilku słów w, odsetku statystycznie znamienne niższym (**od 52,0% - 66,0%**), w stosunku do rówieśników z grupy kontrolnej w tym wieku. W podobnym odsetku opóźnienia te dotyczyły **wypowiadania pierwszych słów (73,0%) i pierwszych zdań (52,1%)**. W przypadku zdań, dzieci z autyzmem wypowiadały je po raz pierwszy **około 14 miesięcy później** niż dzieci zdrowe.
- Dłuższy okres używania smoczka przez dzieci z ASD opóźniał czas wypowiadania pierwszych słów.

Wyniki badania motoryki artykulacyjnej były korzystniejsze w grupie kontrolnej niż dzieci z autyzmem. U dzieci autystycznych dotyczyły one:

- obniżenia sprawności motorycznej języka i warg
- niskich wartości wyników w 100-wyrazowym teście artykulacyjnym, w tym:
 - **braku mowy werbalnej (29,0%) vs mowa prawidłowa(20,0%)** oraz częstości występowania poszczególnych wad wymowy, najczęściej **dyslalii wielorakiej (23,0%)**.

Dane uzyskane **Testem Rozwoju Językowego wykazały dwukrotnie niższe wartości dla danej cechy, uzyskane przez dzieci z ASD**, w porównaniu do grupy kontrolnej. Dotyczyły one wszystkich badanych składowych testu: **rozumienia słów, powtarzania zdań, produkcji słów, rozumienia zdań, odmiany wyrazów oraz rozumienia tekstów.**

Badania słuchu fenomenowego za pomocą karty KOSF wykazało również wyższy odsetek wyników niskich (**17,1%**), w porównaniu do grupy kontrolnej (**3,3%**).

Te nieprawidłowości skutkowały kolejnymi zaburzeniami, stwierdzanymi u dzieci autystycznych. W porównaniu do **ponad 90,0%** dzieci zdrowych było to:

- utrzymanie uwagi przez dzieci z ASD z badającym **tylko u 30,0%**; inicjowanie kontaktu z badającym - u **21,4%**; osiągnięcie zamierzonego celu po komunikacie werbalnym z rozmówcą - u **26,0%** dzieci
- **w ocenie zachowania** - postawę wycofania podczas badania demonstrowało **siedmiokrotnie więcej** dzieci z ASD w porównaniu do grupy kontrolnej, a pobudzenie **trzykrotnie więcej**.

- Jedynie u dzieci z autyzmem stwierdzono występowanie echolalii (**u 52,1%**), która w większym odsetku dotyczyła młodszej grupy wiekowej (**56,7%**), niż w grupy starszej, powyżej 6, roku życia (**44,0%**). Występowanie echolalii było u 87,0% mocno powiązane z odwracaniem zaimków (drugiej, trzeciej osoby), a zależność była istotna statystycznie.

b) W zakresie komunikacji niewerbalnej

- **75,7% badanych nie używało** mimiki jako środka przekazu informacji w komunikacji z badającym, a nieadekwatnie do sytuacji lub treści komunikatu **reagowało 17,9% badanych dzieci autystycznych**
- tylko **u 10,7% badanych z ASD** nie występowało brzmieniowe zaburzenia właściwości mowy (**prozodia**); jedynie **4,3%** z grupy badanej było w stanie podtrzymać konwersację lub potakiwać w jej trakcie, a **18,6%** posługiwało się ręką rozmówcy w celu pozyskania określonego przedmiotu
- odsetek dzieci z zaburzeniami integracji sensorycznej, przejawiającymi się **nadwrażliwością słuchową i na dotyk, dotyczył 65,0% dzieci z autyzmem** w porównaniu **do 5,0%** grupy kontrolnej zdrowych dzieci.

3. Porównanie nabywania umiejętności językowych i komunikacyjnych przez dzieci z autyzmem, korzystających i niekorzystających z systemów alternatywnej i wspomagającej komunikacji.

- Używanie przez rodziców wysokich technologii (określonych narzędzi) jako zastępczych środków komunikacji w pierwszych 2 latach życia **było podobne w grupie badanej (62,9%), jak i kontrolnej (56,7%)**.
- U dzieci z autyzmem, codzienne stosowanie tych technik wspomagania **nie spowodowało statystycznie istotnych różnic** w zakresie częstości wypowiedzenia pierwszych słów i zdań.
- Zależność taką potwierdzono odnośnie **wieku dziecka z autyzmem**, z uwzględnieniem częstości stosowania tych narzędzi (codziennie vs sporadycznie) **oraz miejsca terapii logopedycznej pacjentów** (miejsce nauki, prywatne zajęcia dodatkowe, poradnia psychologiczno-pedagogiczna).

4. Ocena umiejętności komunikacyjnych dzieci z ASD w zależności od wieku postawienia diagnozy i wieku rozpoczęcia terapii.

- Średni wiek postawienia diagnozy autyzmu w młodszej grupie wiekowej wynosił 3 lata, a w starszej grupie wiekowej diagnoza została postawiona pół roku później.
- Wcześniejsza diagnoza autyzmu wiązała się z szybszym panowaniem wypowiedzenia pierwszych słów, ale nie zdań. Późniejsza diagnoza autyzmu wiązała się z późniejszym (około 0,5 roku) rozpoczęciem leczenia logopedycznego.
- Tylko 36,0% dzieci z grupy badanej otrzymało leczenie logopedyczne w momencie ustalenia diagnozy.
- Spośród 140 dzieci stanowiących grupę badaną, tylko 5,7% pozostawało pod opieką rodziców w domu; reszta uczęszczała do przedszkoli i szkół specjalnych (ponad 70,0%), do placówek integracyjnych (18,6%), a 4,3% do szkoły publicznej; w jednostkach tych realizowano terapię logopedyczną. Dzieci nie uczęszczające do placówek edukacyjnych objęte były opieką poradni psychologiczno-pedagogicznej.
- Badania wykazały, że uczęszczanie dzieci z ASD do powyższych placówek i korzystanie (w przeszłości lub aktualnie) z alternatywnymi i wspomagającymi metodami komunikacji (AAC) wpływały korzystnie na sprawność pragmatyczną mowy, inicjowanie kontaktu z badającym oraz na zachowanie tych dzieci.

Rozdział V. Dyskusja.

Dyskusja łączy w sobie elementy rozszerzonego omówienia wyników uzyskanych przez doktorantkę w badanej grupie dzieci i ich konfrontacji z doniesieniami z innych ośrodków zagranicznych i polskich, zajmujących się deficytami rozwoju mowy i umiejętności komunikacyjnych u pacjentów, dotkniętych całościowym zaburzeniem rozwoju w wieku rozwojowym. Doktorantki słusznie podkreśla w dyskusji, że jej praca badawcza jest jedną z nielicznych w Polsce, w których do badań naukowych wykorzystano diagnozę logopedyczną dzieci z autyzmem. Użycie takiego samego narzędzia badawczego ułatwiło doktorantce porównanie własnych wyników zarówno z innymi badaniami polskimi (o czym świadczy treść tekstu i polskie cytowania), jak i zagranicznymi. Wyniki oceny skali zaburzeń rozwoju mowy i komunikacji werbalnej i pozawerbalnej, uzyskane w 140 osobowej grupie dzieci z autyzmem z naszego regionu i konfrontowane z grupą rówieśników zdrowych, są w większości zbieżne z wynikami badań przeprowadzonych w innych ośrodkach. Jediną różnicą, wynikającą z badań własnych, na którą zwraca uwagę doktorantka, są dane z pracy Wadryna i Gałkowskiego, odnośnie zależności pomiędzy wiekiem dzieci z ASD a występowaniem echolalii. Dodatkowym walorem tej dyskusji jest nie tylko koncentrowanie się doktorantki na

charakterze i częstości zaburzeń rozwoju mowy i komunikacji, ale także próba etiopatogenetycznego ich wyjaśnienia.

VI. Wnioski

Z przeprowadzonej pracy badawczej doktorantka wyciągnęła 11 wniosków. W opinii recenzenta niektóre wnioski winny być połączone. Wnioski powinny odpowiadać na założenia **Celu badawczego** lub **pytania szczegółowe tego celu**. Winny one być uogólnieniem uzyskanych wyników i odzwierciedlać trend badanego zjawiska.

Uwagi

Poza powyższą uwagą, dotyczącą Wniosków, recenzent proponuje, aby przy przygotowaniu pracy do druku przeredagować uzyskane wyniki, przypisując je do poszczególnych elementów szczegółowych Celu badawczego i elementów badania logopedycznego.

Podsumowanie

Rozprawa doktorska pt. „**Ocena zaburzeń mowy i komunikacji dzieci z autyzmem w wieku przedszkolnym i szkolnym**”, autorstwa mgr Barbary Szukiel, wnosi nowe, znaczące wartości poznawcze, dotyczące zaburzeń rozwoju mowy i komunikacji ze światem zewnętrznym dzieci z autyzmem. Jest unikalnym i oryginalnym osiągnięciem pracy badawczej doktorantki, poświęconej problematyce autyzmu wczesnodziecięcego, zarówno w wymiarze regionalnym jak i ogólnopolskim.

Rozprawa doktorska spełnia wszelkie wymogi merytoryczne i edytorskie dla tego typu prac. Jest kolejną pracą dotyczącą problematyki autyzmu u dzieci, która została zrealizowana według wytycznych promotora tej pracy prof. dr hab. n. med. Wojciecha Sobańca, twórcy i Kierownika Kliniki Neurologii i Rehabilitacji Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego w Białymstoku, czołowego przedstawiciela neurologii dziecięcej w Polsce.

Wnioskuje do członków Rady Wydziału Nauk o Zdrowiu Uniwersytetu Medycznego w Białymstoku o dopuszczenie mgr Barbary Szukiel do dalszych etapów przewodu doktorskiego.

Prof. dr hab. n. med. Maciej Kaczmarski
emerytowany profesor
Uniwersytetu Medycznego w Białymstoku