

Katowice, 15.06.2022r.

mgr Alicja Affanasowicz

Katedra Fizjoterapii w Dysfunkcjach

Narządu Ruchu i Medycyny Sportowej

Akademia Wychowania Fizycznego

im. Jerzego Kukuczki w Katowicach

dr hab. Dariusz Czaprowski, prof. OSW

Kierownik ds. Klinicznych i Naukowych

Centrum Postawy Ciała, Olsztyn

Wydział Nauk o Zdrowiu

Olsztyńska Szkoła Wyższa, Olsztyn

Odpowiedź na recenzję dotyczącą rozprawy doktorskiej pt.: „*Zastosowanie multimodalnej analizy ruchów spontanicznych (MARS) u noworodków w drugiej lub trzeciej dobie życia*”

Szanowny Panie Profesorze,

na wstępie pragnę serdecznie podziękować za pozytywną ocenę mojej pracy doktorskiej. Dziękuję za zawarte w recenzji konstruktywne uwagi i sugestie, które z całą pewnością będą dla mnie pomocne w przyszłości. Jestem również niezmiernie wdzięczna za podkreślenie dobrych stron mojej rozprawy, co motywuje mnie do dalszej pracy naukowej.

Postaram się jak najlepiej odpowiedzieć na wszystkie poruszone w recenzji zagadnienia. Aby zachować porządek i czytelność mojej odpowiedzi podążę kolejno za uwagami Pana Profesora zgodnie z akapitami recenzji.

1. Informacje ogólne

Dziękuję za wszelkie uwagi odnośnie numeracji i tytułów rozdziałów. Zostaną wprowadzone w autoreferacie i z pewnością wpłyną na jego przejrzystość.

2. Wstęp

Zdecydowanie zgadzam się z Panem Profesorem, że każdy tytuł powinien być precyzyjny i jednoznacznie wskazywać prezentowaną treść. Używając w drugim podrozdziale sformułowania „*Obiektywne metody we wczesnej diagnostyce*” sugerowałam się tym, że praca zawiera się w obszarze pediatrii/neonatologii. Przyznaję, że sformułowanie tytułu tego podrozdziału, jak i kolejnych umieszczonych we wstępie może być postrzegane jako nieprecyzyjne i zostanie poprawione w autoreferacie.

Dziękuję za wskazanie odpowiedniej kolejności opisu metod subiektywnych i obiektywnych oceny aktywności dziecka. Z pewnością zaproponowana przez Pana Profesora kolejność porządkuje treści umieszczone we wstępie.

Odnosząc się do uwagi Pana Profesora dotyczącej tego, że „*Autorka nie konfrontuje wyników badań weryfikujących rzetelność metody Prechtla z innymi metodami. Stąd też trudno stwierdzić przewagę metody Prechtla nad innymi metodami...*” pragnę wyjaśnić, że nie było moją intencją stwierdzenie przewagi metody Prechtla nad innymi metodami, co wyraziłam w zdaniu „*Wśród wymienionych metod subiektywnych, jedną z najbardziej skutecznych w wykrywaniu zaburzeń neurorozwojowych jest metoda Prechtla, której czułość i swoistość w przewidywaniu mózgowego porażenia dziecięcego wynosi odpowiednio 98% i 91%.*”. Wybór metody Prechtla w procedowaniu badań podyktowany był zbieżnością metodyki z proponowanym rozwiązaniem informatycznym oraz brakiem bezpośredniej interakcji osoby przeprowadzającej badanie z noworodkiem, nieinwazyjnością i łatwością wykonania rejestracji video. Nie mniej istotne było podążanie za trendami w badaniach naukowych prowadzonych równoległe przez inne zespoły badawcze dokonujące próby stworzenia komputerowo wspartej diagnostyki noworodków i niemowląt przy wykorzystaniu metody Prechtla.

W pełni przyjmuję uwagę odnośnie zasadności włączenia podrozdziału 1.6 do podrozdziału 1.5. Podążając za sugestią Pana Profesora, zależy mi na wyeksponowaniu podrozdziału „*Multimodalna Analiza Ruchów Spontanicznych - MARS*”, w związku z czym podrozdział ten w autoreferacie będzie miał oznaczenie 1.5.1. Ponadto fragment opisujący zespół badawczy oraz założenia projektowe zostanie przeniesiony z podrozdziału 1.6 do rozdziału opisującego metodę badań.

Korekty wymaga również podkreślone przez Pana Profesora stwierdzenie kończące wstęp w brzmieniu „...zastosowanie narzędzia MARS otwiera możliwość nieinwazyjnego i przyjaznego sposobu oceny ruchów dziecka ..., co wymiennie przyczyni się do optymalizacji trudności diagnostycznych...”. Na tym etapie projektu przyznaję, że było to nieuprawnione i najpierw wymaga przeprowadzenia odpowiedniej weryfikacji przydatności klinicznej narzędzia. W związku z tym zacytowane powyżej zdanie powinno być sformułowane w trybie przypuszczającym. Jednocześnie pragnę przekazać Panu Profesorowi informację, że w zespole trwają już prace związane z walidacją narzędzia MARS i wstępne wyniki są obiecujące.

3. Cele badań

Z zainteresowaniem przyjąłam punkt widzenia Pana Profesora w zakresie głównego celu pracy i kolejności pytań badawczych. Śpieszę z wyjaśnieniem, że cel i pytania badawcze w mojej pracy były związane z chęcią zbadania, czy jest możliwość liczbowej oceny/zmierzania ruchów noworodka przy wykorzystaniu nowatorskiej multimodalnej analizy ruchów spontanicznych. Celem na tym etapie nie była weryfikacja rzetelności urządzenia, jedynie próba liczbowej oceny ruchów spontanicznych. Pytanie badawcze „*Czy istnieje zależność pomiędzy oceną ruchów spontanicznych wykonaną metodą Prechtla a Multimodalną Analizą Ruchów Spontanicznych (MARS)?*” miało służyć sprawdzeniu, czy nowatorskie narzędzie w ogóle potrafi zarejestrować różnicę w ruchach spontanicznych, tak jak różnicę zauważają fizjoterapeuci z wieloletnim doświadczeniem klinicznym. Mam nadzieję, że udało mi się wyjaśnić zasadność sformułowania celu badań i przyjętej kolejności pytań badawczych.

4. Materiał i metody badawcze

Słuszna jest sugestia Pana Profesora dotycząca konieczności uzupełnienia ryciny 1. o informację o czterech, dodatkowo włączonych do badań dzieci urodzonych w 37. tygodniu ciąży. Jest to oczywiście moje niedopatrzenie.

Odnosnie uwagi do tytułu podrozdziału 3.2 „*Opis badania*” zgadzam się, że jest to opis procedury badania. Numerację podrozdziałów w rozdziale 3. i ich zatytułowanie zostanie zmienione w autoreferacie zgodnie ze wskazaniem Pana Profesora, co niewątpliwie wpłynie na uporządkowanie tego rozdziału.

Kolejna kwestia poruszona przez Pana Profesora do której chciałabym się odnieść, to opis sposobu przeprowadzenia diagnostyki w oparciu o metodę Prechtla w podrozdziale 3.3.1. Uwaga Pana Profesora dotyczy wspólnie ustalanego rozpoznania ruchów spontanicznych dziecka przez kilku fizjoterapeutów. Jak słusznie Pan Profesor zauważył takie działanie nie ma zastosowania w praktyce klinicznej, choć w mojej opinii nierzadko byłoby pożądane i zasadne.

Jest natomiast uzasadniona z punktu widzenia naukowego. Zależało mi na tym, aby nie było żadnych wątpliwości w ostatecznej kwalifikacji dziecka do grupy N (norma) lub PR (poor repertoire), która to kwalifikacja, jak się okazało, czasem była trudna przy tak specyficznej grupie badanej. Wydaje się, że bardzo staranna kwalifikacja noworodków przez trzech fizjoterapeutów wymiennie przyczyniła się wykrycia różnic istotnych statystycznie przy zastosowaniu multimodalnej analizy ruchów spontanicznych.

Interesująca sugestia Pana Profesora dotycząca zweryfikowania zgodności oceny przeprowadzonej niezależnie przez ekspertów biorących udział w kwalifikowaniu dzieci do odpowiedniej grupy na podstawie ruchów globalnych, jest warta rozważenia. Dodam, że w ramach prac w zespole OSESEC współtworzyłam artykuł w zbliżonej do zaproponowanej przez Pana Profesora tematyce. Artykuł dotyczy oceny zgodności ekspertów we wskazaniu czasu trwania ruchów writhing u pięciorga noworodków z grupy N [3]. Aktualnie artykuł ten został przyjęty do wygłoszenia i publikacji na najbliższą Międzynarodową Konferencję ITIB (Information Technology In Biomedicine) 2022.

Pragnę odnieść się również do wyrażonej przez Pana Profesora myśli o niedosycie, jaki budzi brak uwypuklenia celu, jakim jest zweryfikowanie przydatności klinicznej proponowanego narzędzia diagnostycznego (MARS) w odniesieniu do jego rzetelności, a także kosztów organizacyjnych oraz ekonomicznych jego stosowania. W moim odczuciu została podjęta próba zweryfikowania przydatności klinicznej proponowanego narzędzia diagnostycznego nieco dalej w rozdziale Dyskusja. Jednoznaczne zweryfikowanie przydatności narzędzia MARS w odniesieniu do jego rzetelności, a także kosztów organizacyjnych oraz ekonomicznych jest trudne na tym etapie projektu i wymaga dalszych badań na większej grupie uczestników. Jednocześnie za wcześnie jest na wskazywanie przewagi MARS nad obecnie stosowanymi metodami, nie było to też celem niniejszej rozprawy.

Odnosnie wyrażonej przez Pana Profesora obawy „... , że *wysoce precyzyjne narzędzia diagnostyczne mogą prowadzić do wychwytywania nieistotnych z punktu widzenia rozwoju dziecka asymetrii*” stwierdzam, że mam nieco inny punkt widzenia. Uważam, że asymetria u noworodka/niemowlęcia, czy też preferencja pozycji wymaga obserwacji, a w niektórych przypadkach również terapii. W dalszej części Pan Profesor wskazuje, że „*Może to prowadzić do zjawiska określanego jako diagnostyka fałszywie dodatnia, czego konsekwencją może być niepotrzebne leczenie (tzw. over-treatment)...*”. Pragnę wytłumaczyć, iż w moim rozumieniu narzędzie MARS miałoby być wsparciem dla medyków w przeprowadzeniu diagnostyki, pełniąc niejako rolę narzędzia przesiewowego. Narzędzie MARS w swoim założeniu nie ma

być narzędziem kwalifikującym dziecko do leczenia/terapii lub nie, to zadanie lekarza lub fizjoterapeuty.

5. Wyniki

Pragnę odpowiedzieć na sugestię Pana Recenzenta dotyczącą wyeksponowania wyników związanych z porównaniem dzieci z ubogim repertuarem do dzieci w normie w odniesieniu do danych zebranych za pomocą MARS. Jest to prawdopodobnie kontynuacja myśli Pana Profesora o zmianie kolejności pytań badawczych. Według mnie użycie w podrozdziale 4.5 wykresów pudełkowych w porównaniu do wyników zamieszczonych w tabelach w pozostałych podrozdziałach rozdziału Wyniki, miało pełnić rolę ich wyróżnienia, przy zachowaniu kolejności przedstawiania wyników zgodnie z przyjętym układem pytań badawczych.

6. Dyskusja

Serdecznie dziękuję Panu Profesorowi za podkreślenie w rozdziale Dyskusja umiejętności krytycznej oceny przeprowadzonego badania oraz dojrzałości naukowej i klinicznej. Słowa te są dla mnie bardzo cenne.

Jak słusznie Pan Recenzent zauważył, w dyskusji brakuje analizy istotności klinicznej w odniesieniu do niektórych z analizowanych parametrów pomiędzy grupą dzieci z ubogim repertuarem oraz w normie. Było to zamierzone na tym etapie badań ze względu na zbyt małą liczebność grupy badanej.

Odnosząc się do pytania Pana Profesora o uzasadnienie kliniczne dla stosowania narzędzia MARS, odpowiedź będzie złożona. Przede wszystkim narzędzie MARS mogłoby służyć do diagnostycznych badań przesiewowych małych dzieci od pierwszych dni po urodzeniu do około 20 tygodnia życia dodając, że w przypadku dzieci urodzonych przedwcześnie zastosowanie ma wiek korygowany. Dzieci zakwalifikowane do grupy innej niż grupa N, byłyby kierowane na dalszą diagnostykę do specjalisty, który podejmowałby decyzję o dalszym leczeniu/terapii dziecka. Ponadto narzędzie MARS mogłoby się przyczynić do obiektywizacji w diagnostyce noworodków i niemowląt, wprowadzając liczbowy opis funkcjonowania dziecka. W praktyce zawodowej w przypadku najmłodszych dzieci fizjoterapeuci często posługują się mało specyficznymi sformułowaniami określającymi np. poprawę, pogorszenie, nie podając wyraźnej wartości. Rodzi się pytanie, co tak naprawdę to oznacza? Czy da się to pogorszenie/poprawę zmierzyć? Czy da się porównać ocenę dziecka między jedną wizytą a drugą, między jednym specjalistą a drugim? Oczywiście zdaję sobie sprawę, że narzędzie MARS wymaga jeszcze wielu badań i iteracji, ale jest próbą znalezienia

odpowiedzi na te pytania, które codziennie towarzyszą fizjoterapeucie pracującemu z najmłodszymi pacjentami.

Odpowiadając na kolejne pytanie Pana Profesora, czy metoda będzie bardziej dostępna niż wykwalifikowany fizjoterapeuta, należałoby odpowiedzieć twierdząco, szczególnie jeśli powstanie aplikacja na smartphone. Natomiast zadając sobie samej pytanie, czy to się uda, nie umiem na tym etapie projektu odpowiedzieć. Jednocześnie pragnę podkreślić myśl z dyskusji, że *„Rozwijanie komputeryzacji w diagnostyce noworodków i niemowląt poprzez opracowywanie zautomatyzowanych rozwiązań ma na celu uzupełnienie oceny w praktyce klinicznej. ...na chwilę obecną... żadne zdigitalizowane rozwiązanie nie jest w stanie zastąpić klinicznej wiedzy i doświadczenia medyków.”*. W opinii autorki dotyczy to również narzędzia MARS. Jednakże wiele zespołów badawczych na całym świecie prowadzi badania w tej tematyce i trudno przewidzieć, jak bardzo zmieni się wczesna diagnostyka w pediatrii np. za dziesięć lat. Ufam, że moje zawile odpowiedzi na postawione przez Pana Profesora pytania dotyczące rozdziału Dyskusja spotkały się z akceptacją.

Pisząc *„...należy stwierdzić, że zastosowanie Multimodalnej Analizy Ruchów Spontanicznych pozwoliło w sposób rzetelny, mierzalny i porównywalny dokonać oceny ruchów spontanicznych noworodków.”* nie miałam na myśli weryfikacji rzetelności czy powtarzalności oceny z wykorzystaniem MARS, gdyż jak słusznie Pan Profesor stwierdził, nie było to celem badania. Pragnę usprawiedliwić się, że użyłam słowa „*rzetelny*” w znaczeniu „*dokładny*”, natomiast słowa „*mierzalny*” w znaczeniu „*policzalny*”, mieszając niejako pojęcia powszechnie używane z pojęciami jednoznacznie opisującymi analizy statystyczne. Jeśli chodzi o słowo „*porównywalny*” użyłam go, mając na myśli możliwość porównywania wyników uzyskanych przy użyciu narzędzia MARS w aspekcie symetrii prawych i lewych kostek oraz nadgarstków, podziału na płeć, podziału w odniesieniu do wieku matki, masy urodzeniowej noworodka, rodzaju porodu, jak również w odniesieniu do podziału na grupy N i PR zgodnie z oceną ruchów metodą Prechtla. W przyszłości postaram się wyrażać swoje myśli bardziej starannie i precyzyjnie tak, aby użyte przeze mnie sformułowania nie budziły wątpliwości interpretacyjnych.

Zgadzam się z uwagą Pana Recenzenta, że nie ma podstaw płynących z przeprowadzonego badania, by móc uzasadnić użyte przez mnie stwierdzenie: *„...Zapis ruchów dziecka w postaci wskaźników ilościowych pozwoli na... wyznaczenie celów terapii neurorozwojowej”*. Przytoczone zdanie było z mojej strony zbyt daleko wybiegającym w przyszłość sformułowaniem.

7. Streszczenie/Summary

Bardzo dziękuję za miłe dla mnie słowa uznania dotyczące umiejętności zwięzłego opracowania streszczenia.

8. Załącznik nr 1 – Kwestionariusz

Dziękuję za istotną uwagę dotyczącą zatytułowania i treści formularzy: „*Informacja dla badanego*” oraz „*Oświadczenie badanego*”. W przyszłości w ramach badań obejmujących noworodki czy niemowlęta dostosuję tytuł i treść tychże formularzy według wskazań Pana Recenzenta.

Jak słusznie Pan Profesor zauważył w „*Informacji dla badanego*” można odnaleźć wskazanie, że w przypadku pytań należy zgłosić się do kierownika badania i znajdują się tam dwa nazwiska, ale żadne z nich nie jest nazwiskiem autorki. Powodem tego jest rozbudowany zespół osób odpowiedzialnych za badanie i projekt OSESEC. Decyzją zespołu było umieszczenie w formularzu tych osób, które odpowiadają za całość rozbudowanego o różne aspekty projektu.

W tym miejscu wyprzedzając pojawienie się pytania o rolę autorki w badaniach noworodków pragnę wyjaśnić, że byłam odpowiedzialna za skoordynowanie i przeprowadzenie badań na grupie noworodków, kontakt z Ordynatorem oddziału noworodkowego oraz z pielęgniarkami, jak również osobiście uczestniczyłam w rejestracji video noworodków, opracowaniu bazy danych, opracowaniu treści naukowych w oparciu o analizę bibliograficzną. Ponadto czynnie wystąpiłam przed Komisją Bioetyczną Akademii Wychowania Fizycznego w Katowicach, aby uzyskać zgodę na badania.

9. Uwagi edytorskie i redakcyjne

Dziękuję za wskazane błędy interpunkcyjne oraz stylistyczne. W przyszłości będę się starała ich unikać. Jednocześnie jestem wdzięczna za podkreślenie dbałości o aspekty edytorskie oraz formalne, co dało mi dużo satysfakcji.

Za wszystkie pozostałe wartościowe uwagi dotyczące między innymi wyjaśnienia skrótów wykorzystanych w tabelach, braku Spisu tabel i Spisu rycin, braku wskazania źródła pochodzenia rycin od 2. do 7. dziękuję i będę o nich pamiętała w dalszej pracy naukowej.

W pełni zgadzam się ze zdaniem Pana Profesora, że każdy akapit należy traktować jako osobną myśl i na jego końcu zawsze powinno znaleźć się źródło odnoszące się do pozycji piśmiennictwa, na podstawie której sformułowano dany fragment. Niestety nie udało mi się

uniknąć, mimo wielokrotnego sprawdzania tekstu rozprawy doktorskiej, wskazanych braków w podaniu źródła. W przypadku zdania „*Z bogatego repertuaru... GMS są najczęściej występującymi i najbardziej złożonymi.*” źródłem jest Guzzetta i wsp. [1] oraz Hadders-Algra [2]. W rozprawie doktorskiej są to odpowiednio pozycje [40] i [41]. Natomiast drugie wskazane przez Pana Profesora zdanie dotyczące narzędzia PodoBaby „*W praktyce klinicznej taka formuła badania jest obciążona stresem dla niemowlęcia, ze względu na niekomfortowe wrażenia dotykowe.*” jest wynikiem zasłyszanych informacji od terapeutów mających doświadczenie praktyczne w posługiwaniu się tym rozwiązaniem i niewątpliwie w dysertacji powinno brzmieć mniej arbitralnie.

Na zakończenie pragnę jeszcze raz gorąco podziękować Panu Profesorowi za poświęcenie cennego czasu oraz wnikliwą analizę mojej rozprawy. Wszystkie komentarze, uwagi, sugestie, spostrzeżenia i pozytywne podkreślenia są dla mnie niezwykle ważne, i biorę je sobie głęboko do serca. Dzięki recenzji Pana Profesora wiele się nauczyłam, co z pewnością podniesie walory mojej pracy naukowej w przyszłości.

Z wyrazami szacunku,

Alicja Affanasowicz

Bibliografia:

1. Guzzetta A, Mercuri E, Rapisardi G, Ferrari F, Roversi MF, Cowan F, Rutherford M, Paolicelli PB, Einspieler C, Boldrini A, Dubowitz L, Prechtl HF, Cioni G. General movements detect early signs of hemiplegia in term infants with neonatal cerebral infarction. *Neuropediatrics*, 2003; 34(2):61-66
2. Hadders-Algra M. Early diagnosis and early intervention in cerebral palsy. *Front Neurol*, 2014; 5:185
3. Latos D, Ledwoń D, Danch-Wierzchowska M, Doroniewicz I, Affanasowicz A, Kieszczyńska K, Matyja M, Myśliwiec A. Analysis of expert agreement on determining the duration of writhing movements in infants to develop an algorithm in OSESEC. ITIB 2022, w przygotowaniu do druku