

Recenzja rozprawy doktorskiej mgr Karoliny Krzysztofik
pt. *Mechanizm teorii umysłu jako mediator związku poziomą reaktywności sensorycznej*
z nasileniem syndromu autyzmu,
przygotowanej pod kierunkiem prof. dr. hab. Wojciecha Otrębskiego

Rozprawa doktorska Pani mgr Katarzyny Krzysztofik dotyczy interesującego zagadnienia powiązań między przetwarzaniem sensorycznym a nasileniem symptomów zaburzeń ze spektrum autyzmu (*autism spectrum disorders*, ASD), z uwzględnieniem mediującej roli wybranych zdolności z zakresu teorii umysłu, u dzieci w wieku 2;8-9;3 lat. Temat pracy odnosi się do jednego z najbardziej zagadkowych problemów w obszarze wiedzy o ASD – związków nietypowego odbioru i przetwarzania bodźców sensorycznych z symptomami tych zaburzeń. Uwzględnienie znaczenia teorii umysłu w kontekście powyższego związku czyni tę pracę oryginalną i szczególnie interesującą.

Zanim przejdę do zrecenzowania poszczególnych elementów rozprawy i zaprezentowanego w niej badania, zatrzymam się przy tytule pracy. Znajduje się w nim termin „nasilenie syndromu autyzmu”. Ujęcie autyzmu jako „syndromu” jest w obecnej literaturze przedmiotu rzadkie (dominuje – odzwierciedlone w systemach klasyfikacyjnych – myślenie o autyzmie w kategoriach spektrum zaburzeń) i może być odebrane przez czytelnika jako ograniczenie się do jednostki diagnostycznej „autyzm dziecięcy” (istniejącej w jeszcze obowiązującym w Polsce systemie diagnostycznym ICD-10). Tymczasem w pracy Autorka odnosi się do autystycznego spektrum zaburzeń, wobec którego określenie „syndrom” nie powinno być stosowane.

Charakterystyka formalna rozprawy

Rozprawa jest obszerna, liczy 225 stron plus aneks (65 stron). Układ treści jest logiczny, dobrze uporządkowany. Wprowadzenie teoretyczne obejmuje trzy rozdziały, kolejny rozdział poświęcono metodzie badań, a cztery następne prezentacji wyników. Pewnym odstępstwem od typowej struktury pracy doktorskiej – w sytuacji, gdy przeprowadzone zostało jedno badanie – jest umieszczenie dyskusji wyników w częściach prezentujących wyniki i

wyodrębnionych ze względu na rodzaj analiz (cztery rozdziały: rozkład zmiennych w badanej próbie, analizy związków korelacyjnych między trzema głównymi analizowanymi zmiennymi oraz modele tych związków w całej próbie dzieci z ASD i w podgrupie dzieci z ASD o rozwoju mowy na poziomie co najmniej 4 r.ż). W pracy nie ma podsumowującej, całościowej dyskusji, co do pewnego stopnia można zapewne uzasadnić faktem, że dwa rozdziały poświęcone modelom mają integrujący, zbiorczy charakter. Nie znalazłam też streszczenia pracy w języku polskim. Funkcję streszczenia stanowi w pewnej mierze część zatytułowana „Wstęp”, w której przedstawiono już także wyniki pracy.

Zestaw zacytowanej literatury jest bardzo bogaty, dobrany adekwatnie do tematyki pracy i odpowiednio wykorzystany. Pracę czyta się dobrze, choć Autorka nie ustrzegła się błędów różnego typu (w tym ortograficznych, np. „z pośród” na str. 13, „ponad to” m.in. na str. 73, 190, 191).

Generalnie pod względem technicznym praca spełnia wymagania stawiane rozprawom doktorskim. Pewnym problemem są dla czytającego skróty nazw zmiennych w tabelach. O ile w tabelach następujących bezpośrednio po wyjaśnieniu skrótów w tekście nie utrudnia to lektury, to w dalszych, bardziej odległych od tego wyjaśnienia, jest już niemałym wyzwaniem. Wyjaśnienie skrótów w legendzie każdej tabeli wydaje się w takiej sytuacji konieczne.

Część teoretyczna

Część teoretyczna rozprawy składa się z trzech rozdziałów i stanowi odpowiednie wprowadzenie do badań własnych. Nie ulega wątpliwości, że Doktorantka posiada rozległą i pogłębioną wiedzę w zakresie odpowiadającym problematyce pracy.

Rozdział I zawiera charakterystykę ASD jako zaburzenia neurorozwojowego. Autorka krótko opisała modele wyjaśniające zaburzenia rozwoju, relacjonując za Kendallem podstawowe podejścia. Jako ramę teoretyczną dla swoich badań wybrała Model X Shape Uty Frith. Ten trójpoziomowy model opisujący zależności między czynnikami biologicznymi, poznawczymi i behawioralnymi, z uwzględnieniem wpływów środowiska, stwarza szerokie ramy do prowadzenia badań nad uwarunkowaniami behawioralnych symptomów ASD i stanowi trafną podstawę dla badania zaprezentowanego w rozprawie. W rozdziale I Doktorantka

omawia również kryteria diagnostyczne ASD oraz koncepcje wyjaśniające powstawanie tych zaburzeń, a także wyniki badań nad uwarunkowaniami genetycznymi, środowiskowymi, biologicznymi. W kontekście tematu pracy najbardziej istotne wydają się fragmenty poświęcone procesom sensorycznym oraz deficytom poznawczym. Ten pierwszy fragment – zresztą bardzo krótki – zdominowany został przez wątek integracji sensorycznej. Drugi poświęcono procesom spostrzegania, teorii umysłu, problemom związanym z komunikowaniem się, zaburzeniom funkcji wykonawczych i wielu innym zagadnieniom. Zawarte w rozdziale informacje są poprawne merytorycznie; stanowi on bardzo szerokie zarysowanie kontekstu, w jakim mieści się problematyka pracy.

Rozdział II poświęcony został omówieniu znaczenia integracji sensorycznej w powstawaniu symptomów ASD oraz przebiegu tych zaburzeń. Dobrze już udokumentowano, że różne aspekty procesów odbioru i przetwarzania bodźców sensorycznych są u osób z ASD nietypowe i wiążą się z doświadczanymi trudnościami oraz dyskomfortem. Problemem wciąż jest jednak brak powszechnie akceptowanej teorii wyjaśniającej charakter tych trudności oraz ich znaczenie dla innych aspektów funkcjonowania osób z ASD. Teoria integracji sensorycznej, na którą powołuje się Doktorantka, budzi wątpliwości. Zarzuca się jej uproszczenia w odniesieniu do postulowanych związków przyczynowo-skutkowych, brak naukowych przesłanek dla wielu tez oraz brak potwierdzenia w postaci dowodów empirycznych pochodzących z badań spełniających wysokie standardy wnioskowania naukowego. Nawet definicja kluczowego konstruktu „integracja sensoryczna” jest problematyczna, podobnie jak fundamentalna teza głosząca, że integracja sensoryczna na poziomie odbioru wrażeń zmysłowych jest niezbędna dla wyższego poziomu przetwarzania poznawczego. Także badania neurofizjologiczne nie dostarczyły jednoznacznego wsparcia dla tej teorii. Doktorantka szczegółowo opisuje teorię Ayres, odwołuje się też do prac innych autorów, zwłaszcza Kranowitz i Przyrowskiego. Omawia wyniki badań nad różnymi aspektami odbioru i przetwarzania sensorycznego, porządkując je wg kilku zagadnień (odpowiedź neuronalna na bodziec sensoryczny, sprawność procesów percepcyjnych, reakcje fizjologiczne na bodźce sensoryczne, reakcje behawioralne na te bodźce). W kolejnym podrozdziale powraca do tematu integracji sensorycznej, opisując hipotetyczne mechanizmy powstawania nieprawidłowości w tym obszarze. W roz. II pojawia się też wątek podtypów w populacji osób z ASD wyróżnionych ze względu na funkcjonowanie w zakresie wrażliwości sensorycznej oraz – ujęty bardzo krótko – temat powiązań między wrażliwością sensoryczną

a symptomami ASD. Biorąc pod uwagę tytuł pracy i treść tego rozdziału, można się domyślać, że Doktorantka stawia znak równości między wrażliwością sensoryczną a reaktywnością sensoryczną. Nie zostało to jednak wprost napisane.

Generalnie rozdział II budziłby mniej wątpliwości, gdyby Autorka skupiła się w nim na prezentacji dotychczasowej wiedzy na temat odbioru i przetwarzania sensorycznego, a nie na dyskusyjnej koncepcji integracji sensorycznej. Istnieją zresztą inne ujęcia teoretyczne, które odnoszą się do problemów sensorycznych osób z ASD, w mniejszym stopniu odwołujące się do integracji sensorycznej (np. teoria Winnie Dunn). W rozdziale tym szczególnie zabrakło mi krytycznej refleksji nad wartością terapii SI, a zwłaszcza nad leżącą u jej podłoża teorią. Dodatkowo nie jest jasne, jak Autorka rozumie relację między wrażliwością a reaktywnością sensoryczną i jaki aspekt przetwarzania sensorycznego rzeczywiście ją w tej pracy interesuje.

Rozdział III poświęcony został znaczeniu deficytów w teorii umysłu w powstawaniu symptomów zaburzeń ze spektrum autyzmu oraz przebiegu tych zaburzeń. Zawiera bogaty przegląd informacji o koncepcjach teorii umysłu, strukturze teorii umysłu, jej relacjach a naśladowaniem, zabawą na niby, rozpoznawaniem emocji, współdzieleniem uwagi, empatią i funkcjami wykonawczymi. Krótki podrozdział dotyczy także neurofizjologicznych korelatów teorii umysłu. Autorka prezentuje dużą wiedzę i ze swobodą porusza się w tej złożonej problematyce. W drugiej części tego rozdziału opisuje teorię umysłu u osób z ASD, uwypuklając zwłaszcza aspekt systemów *explicite* i *implicite* oraz omawiając hipotezę deficytów percepcyjnych leżących u podłoża rozwoju mechanizmów poznawczych. Kolejne podrozdziały dotyczą m. in. relacji teorii umysłu z kompetencjami społecznymi i językowymi u osób z ASD, a także powiązań między teorią umysłu a nasileniem symptomów ASD. Podstawowe rozważania w tej części dotyczą predykcyjnego znaczenia teorii umysłu dla rozwoju kompetencji społecznych osób z ASD oraz mediującej roli kompetencji językowych. Druga część odnosi się do powiązań między systemem *explicite* teorii umysłu a nasileniem symptomów ASD.

Badanie własne

Opis badania własnego rozpoczyna się od prezentacji teoretycznego modelu badań, którym jest, jak wspomniałam powyżej, Model X Shape wg Frith, z modyfikacją polegającą na wyodrębnieniu procesów integracji sensorycznej. Procesy te pośredniczą w

zmodyfikowanym modelu między procesami neurofizjologicznym a fenotypem poznawczym. Takie ujęcie prowadzi do pytania o charakter procesów integracji sensorycznej i status tej zmiennej, „zawieszona” w modelu teoretycznym między czynnikami biologicznymi a poznawczymi. Dodatkowo nie jest jasne, jak ma się ona do reaktywności sensorycznej. Tak więc w pracy istnieje pewien terminologiczny zamęt, na usprawiedliwienie którego można dodać, że wokół kwestii sensorycznych w ASD generalnie wiele jest niejasności i problemów definicyjnych.

Doktorantka sformułowała aż 11 hipotez, dotyczących różnych aspektów badanej problematyki. Ogólnie rzecz biorąc, hipotezy te zostały ujęte poprawnie i mogły zostać zweryfikowane empirycznie. Trzy z nich odnosiły się do różnic międzypłciowych (lub ich braku) w zakresie nasilenia symptomów ASD, reaktywności sensorycznej i teorii umysłu. Ponieważ czynnikowi „płeć” nadano tak wysoką rangę, można by oczekiwać, że ten wątek będzie dokładniej omówiony w części teoretycznej. Od razu trzeba też zauważyć, że niewielka liczba dziewcząt uczestniczących w projekcie utrudniała głębszą eksplorację tych zagadnień. Dodatkowo dwie z trzech hipotez mówiły o braku różnic międzypłciowych, co poddaje w wątpliwość zasadność ich sformułowania.

Plan badania zakładał udział jednej grupy: dzieci z diagnozą ASD w przedziale wieku od 2;8 do 9;3 lat. Doktorantka zrealizowała złożony program badawczy i rozumiem, że objęcie nim jeszcze jednej grupy stwarzałoby nadmierne wymagania w projekcie doktorskim. Można również mieć wątpliwości, jak właściwie należałoby dobrać grupę kontrolną, ale w mojej opinii praca znacznie by zyskała, gdyby taka grupa została włączona.

Opis badanych w całej próbie łącznie jest kompletny i zawiera różnorodne informacje. Szkoda, że zabrakło takich danych w odniesieniu do każdej z porównywanych podgrup. Biorąc pod uwagę rozpiętość wieku dzieci, istotne wydaje się też pytanie, jak wyglądała procedura badania w przypadku poszczególnych uczestników: czy zastosowano te same narzędzia? Jak motywowano dzieci i w ogóle, czy w procedurze badania istniały jakieś różnice w przypadku badania 2 lub 3-latków i 8 czy 9-latków?

W pracy wykorzystano bogaty zestaw narzędzi badawczych, w tym narzędzia własnej konstrukcji lub adaptowane do warunków polskich. Jednym z nich była Skala nasilenia

symptomów ASD (Krzysztofik i Otrębski). Proces konstrukcji narzędzia został szczegółowo opisany. Spójność wewnętrzna kwestionariusza jest satysfakcjonująca, ale nie podano informacji na temat innych właściwości. Problemатyczne jest też oparcie się w pomiarze nasilenia symptomów ASD wyłącznie na tym jednym, wypełnianym przez rodziców, kwestionariuszu, w sytuacji, gdy zmienna ta odgrywała kluczową rolę w projekcie.

Do pomiaru reaktywności sensorycznej zastosowano Kwestionariusz Doświadczeń Sensorycznych Grace Baranek w polskiej adaptacji Krzysztofik, Otrębskiego i Wiącka, zaś do pomiaru zdolności za zakresu ToMM – Skalę Mechanizmu Teorii Umysłu, autorstwa Krzysztofik, na podstawie koncepcji Howlin, Barona-Cohena i Hadwin. Zarówno Kwestionariusz, jak i Skala zostały sprawdzone pod kątem właściwości psychometrycznych. Projekt doktorski przyczynił się więc do powstania nowych narzędzi i wiązał się z ogromem pracy nad nimi, co z pewnością należy docenić.

Wyniki badania zostały szczegółowo i klarownie opisane w czterech rozdziałach, wyodrębnionych z uwagi na charakter i cele analiz. Rozdział V zawiera charakterystykę badanej próby pod względem rozkładów wyników w zakresie nasilenia symptomów ASD, reaktywności sensorycznej oraz badanych aspektów teorii umysłu. Analizy objęły wyniki 63 dzieci – usunięto dane 36 dzieci z powodu ich niekompletności. Uwagę zwraca duża liczba wykluczonych z analiz (1/3 wyjściowej próby). Doktorantka podaje, że wynikało to przede wszystkim z braku zwrotu wypełnionych kwestionariuszy przez rodziców. Nie odnosi się jednak do tego zagadnienia więcej (np. w ograniczeniach pracy), choć tego typu refleksja wydaje się niezbędna. Miałam też trudności z ustaleniem liczby uczestników na różnych etapach badania. W opisie próby na str. 110-114 mowa jest o 89 dzieciach. Poczynając od strony 126 pojawia się informacja o 36 usuniętych „obserwacjach”. Skąd jednak bierze się – konsekwentnie powtarzana – liczba 63 badanych (prosta operacja arytmetyczna przynosi inny wynik: $89 - 36 = 53$)? Jeżeli w tym przypadku obserwacja nie była równoznaczna z uczestnikiem, to należałoby to wyjaśnić.

Niektóre spostrzeżenia Autorki odnoszące się do wyników analiz wymagałyby dokładniejszego opisu – np. na str. 129 i 130 podana została informacja o większym nasileniu symptomów w zakresie komunikacji i interakcji społecznych niż w zakresie ograniczonych wzorców zachowania, zainteresowań i aktywności; skale te nie miały jednak równej liczby

pozycji, interesujące jest więc, jak ten problem rozwiązano. Ponadto nie podano wyników analiz statystycznych uprawniających do tych stwierdzeń. To samo dotyczy informacji na temat doświadczeń sensorycznych. Wspomniana przeze mnie duża rozpiętość wieku w badanej próbie (nie wiadomo, jaka była ona po usunięciu wyników 36 uczestników badania) stawia po znakiem zapytania sensowność podawania średnich wyników w całej próbie, jeśli chodzi o badane aspekty ToMM – jest oczywiste, że poziom rozwoju tych zdolności musiał być bardzo zróżnicowany. Znacznie bardziej interesujące byłoby dokładne prześledzenie związku wieku z poziomem rozwoju w tym zakresie, pod warunkiem jednak kontrolowania wieku umysłowego i poziomu rozwoju językowego. Rozdział V zawiera także analizy bezpośrednio powiązane z hipotezami (np. hipotezą pierwszą odnoszącą się do różnic płciowych). W tym wypadku istotny jest brak informacji o wyrównaniu grup dziewcząt i chłopców pod względem wieku, poziomu rozwoju językowego, współwystępującej niepełnosprawności intelektualnej lub innych zaburzeń towarzyszących itd. Brak uwzględnienia tych zmiennych ogranicza wartość analiz. Chociaż więc porównania dziewcząt i chłopców z ASD wciąż należą do relatywnie rzadkich i oczekiwanych kierunków badań, to standard w tym zakresie wymaga już więcej, niż w tej pracy zostało wykonane.

W rozdziale VI przedstawione zostały wyniki analiz związków między nasileniem symptomów ASD, reaktywnością sensoryczną i poziomem zdolności w zakresie ToMM. Analizy te przeprowadzono oddzielnie w dwóch podgrupach wyodrębnionych ze względu na poziom rozwoju mowy (poniżej 4 r.ż. lub co najmniej 4 r.ż.). Wykorzystano współczynniki korelacji r-Pearsona lub rho-Spearmana. Uwagę zwraca niewielka liczba istotnych korelacji między reaktywnością sensoryczną a elementami ToMM, zwłaszcza w grupie dzieci o poziomie rozumienia mowy 4 lata lub więcej. Interesujące są wyniki wskazujące na silniejsze korelacje (choć współczynniki nie zostały ostatecznie porównane ze sobą matematycznie) między nasileniem symptomów ASD a reaktywnością sensoryczną w grupie dzieci z rozumieniem mowy < 4 r. ż., niż w grupie o poziomie rozumienia mowy co najmniej 4 lata. Wynik ten nie jest łatwy do interpretacji. W dyskusji Autorka raczej go opisuje niż wyjaśnia i jestem bardzo ciekawa, jakie widzi możliwości interpretacji.

Analizy zaprezentowane w roz: VI stanowią punkt wyjścia do testowania modeli związku między badanymi zmiennymi (roz. VII i VIII). Doktorantka używa wielokrotnie terminu „determinowanie”, który zaczerpnięty jest zapewne z języka opisu analiz statystycznych, ale

wyduje się zbyt mocny w stosunku do analizowanych zależności. Wyniki tych analiz są interesujące i wskazują, że reaktywność sensoryczna i poziom rozwoju w zakresie ToMM wyjaśniają łącznie niemalże procent wariacji w zakresie nasilenia symptomów ASD. Interesujący jest model mediacyjny, pokazujący, że zdolności w zakresie ToMM mogą mediować związek reaktywności sensorycznej z nasileniem symptomów ASD. Analizie poddano także inne układy zmiennych (dla ogólnego nasilenia symptomów ASD, nasilenia symptomów w dwóch analizowanych obszarach), traktując ToMM jako mediator. Bardzo interesujące jest, jak Autorka interpretuje odnotowany przez siebie fakt, że poziom rozpoznawania emocji mediuje związek między reaktywnością sensoryczną a nasileniem symptomów ASD. W dyskusji zawarto raczej podsumowanie wyników oraz zestawiono je z rezultatami innych badań, brakuje natomiast prób głębszego wyjaśnienia. Konkluzja sformułowana w tym rozdziale jest z pewnością słuszna i mówi o zasadności podejmowania w procesie terapii jednoczesnych działań zorientowanych na przetwarzanie sensoryczne i rozpoznawanie emocji u dzieci z ASD. Wyniki badania dostarczają dodatkowego wsparcia dla takiego kierunku myślenia.

W roz. VIII przedstawione zostały wyniki takich samych analiz przeprowadzonych w podgrupie dzieci o poziomie rozumienia mowy minimum 4 lata. Wiele wyników jest podobnych do uzyskanych w całej grupie badanych łącznie, ale wystąpiły też pewne różnice. Są to bardzo szczegółowe zależności (np. między poszukiwaniem sensorycznym a ogólnym nasileniem symptomów ASD, z uwzględnieniem roli rozumienia przekonań). Zależności te z pewnością wymagają dalszych badań, a otrzymane wyniki powinny być traktowane jako wstęp do nich, nie zaś udowodniony stan rzeczy. Warto byłoby osłabić niektóre sformułowania w tej części pracy.

Podsumowanie

Doktorantka zrealizowała interesujący zamiar badawczy, poszukując odpowiedzi na pytanie o rolę odbioru bodźców sensorycznych i ich przetwarzania w powstawaniu symptomów ASD, z uwzględnieniem mediującej roli wybranych aspektów teorii umysłu. Sformułowanie problemu jest nowatorskie, a ramy teoretyczne odpowiednio dobrane. W części teoretycznej pracy Autorka udowodniła swoją rozległą wiedzę na temat zaburzeń ze spektrum autyzmu, problemów sensorycznych u osób z ASD oraz teorii umysłu. Sformułowała klarowne pytania i hipotezy badawcze. Zbadała relatywnie dużą grupę dzieci z ASD w wieku ok. 2-9 lat,

wykorzystując przede wszystkim narzędzia własnej konstrukcji lub własną (zespołową) adaptację narzędzi obcojęzycznych. Szczegółowo przeanalizowała otrzymane dane, klarownie i kompletnie opisała wyniki tych analiz oraz poddała je dyskusji.

W recenzji sformułowałam szereg uwag polemicznych oraz wątpliwości odnoszących się do różnych aspektów pracy. Najważniejsze z nich dotyczą kontrowersji wokół teorii integracji sensorycznej, planu badania obejmującego jedną grupę oraz bazowania na jednym, wypełnianym przez rodziców, narzędziu w pomiarze symptomów ASD. Należy jednak podkreślić, że obszar, którego badanie dotyczyło i charakter próby z natury rzeczy wiążą się z wieloma trudnościami. **W mojej końcowej ocenie rozprawa Pani mgr Karoliny Krzysztofik wnosi do nauki nową wiedzę i stanowi inspirację dla dalszych badań. Opracowane narzędzia powiększają instrumentarium dostępne polskiemu badaczowi, co również należy docenić. Biorąc pod uwagę niekwestionowane zalety pracy, wnoszę o dopuszczenie Pani mgr Karoliny Krzysztofik do dalszych etapów przewodu doktorskiego.**



prof. dr hab. Ewa Pisula
Wydział Psychologii
Uniwersytet Warszawski