

Recenzja rozprawy doktorskiej pt. *Zmienność kąta rotacji tułowia u dzieci i młodzieży ze skoliozą idiopatyczną*, autorstwa mgr Justyny Blody, na mocy uchwały z dnia 7 lutego 2017 roku Rady Wydziału Rehabilitacji Akademii Wychowania Fizycznego Józefa Piłsudskiego w Warszawie.

Recenzent: dr hab. prof. AWF Maciej Płaszewski

02 kwiecień 2017

Trafność podjętej problematyki badawczej i jej oryginalność; uzyskane rezultaty i ich znaczenie dla nauki i praktyki

Przedmiotem recenzji jest rozprawa doktorska dotycząca badania wpływu metody i sposobu pomiaru oraz czynników występujących u osób badanych na wyniki pomiarów zmienności kąta rotacji tułowia u dzieci i młodzieży ze skoliozą idiopatyczną.

Doktorantka podjęła istotny zarówno naukowo, jak i dla praktyki, temat niezawodności testu Adamsa (testu w skłonie w przód), wykonywanego wraz z pomiarem kąta rotacji kręgosłupa za pomocą inklinometru (skoliometru) Bunnela. Test Adamsa jest od lat powszechnie stosowanym sposobem badania przesiewowego w kierunku występowania skoliozy u dzieci i młodzieży szkolnej, zalecanym do stosowania przez profesjonalistów (lekarzy, fizjoterapeutów, nauczycieli wychowania fizycznego, pielęgniarki szkolne), ale także – np. w Australii w ramach ogólnokrajowego programu – rodzicom dzieci, zwłaszcza dziewcząt, w wieku pokwitaniowym. Pomiar kąta rotacji tułowia przy użyciu skoliometru Bunnela, uzupełniający wyniki testu Adamsa, został wprowadzony do praktyki w latach osiemdziesiątych XX wieku i jest obecnie standardowym sposobem diagnozowania występowania lub progresji skrzywienia kręgosłupa i deformacji klatki piersiowej w przebiegu skoliozy. O ile test Adamsa służy do stwierdzania podejrzenia występowania skoliozy, to pomiar za pomocą skoliometru jest sposobem ilościowej oceny rotacji kręgosłupa i klatki piersiowej. Problem dotyczy około 3-4% (częstość występowania skolioz), a w przypadku badań przesiewowych, w zależności od krajowych i regionalnych przepisów i praktyk – nawet całej populacji dzieci i młodzieży.

Warte zaakcentowania jest trafne zdefiniowanie przez Doktorantkę problematyki badawczej – zajęcie się rzetelnością pomiarów inklinometrem Bunnela w połączeniu z testem Adamsa głównie w kontekście pomiarów u dzieci i młodzieży ze stwierdzoną skoliozą – w ramach procesu terapeutycznego – a nie jako narzędzia badań przesiewowych. Kontrowersje co do zasadności skriningu w kierunku skoliozy dotyczą bowiem przede wszystkim kwestii uzasadnienia dla kwalifikowania do interwencji terapeutycznych w sytuacji braku silnych dowodów skuteczności terapii (m. in. wytyczne US Preventive Services Task Force, UK National Screening Committee, National Health and Medical Research Council Australia), a nie czułości i specyficzności testu. Natomiast Autorka zajęła się problematyką niezawodności pomiaru kąta rotacji tułowia w warunkach klinicznych, analizując szereg – właściwie i z odpowiednim uzasadnieniem wytypowanych – czynników moderujących (m. in. lokalizacja skrzywienia, typ skrzywienia i występowanie nadmiernej ruchomości stawów), a przede wszystkim dokonując analizy wielkości różnic kolejnych pomiarów wykonywanych przez tego samego badającego i przez dwoje różnych badających. Autorka analizowała, zwłaszcza w dyskusji wyników pracy, zagadnienie dotyczące oddzielania różnic

uzyskiwanych wyników pomiarów z powodu występowania niedokładności metody bądź błędu pomiaru od rzeczywistych zmian kąta rotacji tułowia. Jest to o tyle istotne i świadczy o przygotowaniu Doktorantki, że błędna interpretacja tych dwóch różnych fenomenów może prowadzić do fałszywie dodatnich diagnoz. Jako przykład może posłużyć stosowana kiedyś klasyfikacja tzw. „postaw skoliozycznych” dla skrzywień kręgosłupa poniżej 10° według Cobba. Tymczasem uznawany za dopuszczalny błąd pomiaru (pomiędzy różnymi oceniającymi) wynosi 6°.

Doktorantka wskazała w pracy – odwołując się do własnych obserwacji w praktyce zawodowej i do analizy literatury – odpowiednio występowanie różnic wyników pomiarów u tych samych badanych i braki wiedzy dotyczące niezawodności pomiarów kąta rotacji tułowia za pomocą skoliometru Bunnela. Autorka określiła – rozpoznane przez innych badaczy – możliwe przyczyny różnorodności wyników pomiarów i błędów pomiarów, w tym niedokładność lub braki jednorodnych wytycznych wykonywania testu Adamsa. Istotność tego zagadnienia i znaczenie postawionych przez Doktorantkę problemów badawczych są warte podkreślenia – fałszywie ujemne wyniki testu Adamsa i/ lub pomiaru kąta rotacji tułowia mogą prowadzić do zbyt późnego wprowadzenia terapii (a cechą skolioz idiopatycznych może być szybka i znacząca progresja deformacji), a fałszywie dodatnie diagnozy mogą skutkować wprowadzeniem niepotrzebnego i uciążliwego leczenia i wywoływać poczucie stygmatyzacji i labelizacji. Autorka zajęła się zagadnieniem trafności i niezawodności pomiarów u osób z rozpoznaną skoliozą, w odniesieniu do zastosowań klinicznych. Natomiast warto zauważyć, że – także analizowane w pracy, lecz prawidłowo nie brane pod uwagę podczas interpretowania wyników badań – zagadnienie czułości i specyficzności badanej metody pomiaru wydaje jest istotne w przypadku badań skринingowych (kwestia fałszywie dodatnich i fałszywie ujemnych rozpoznań, błędów pomiaru typu I i typu II), a nie w badaniach u osób z rozpoznaną deformacją. Sformułowane w pracy wnioski, odnoszące się do zwiększenia rzetelności i powtarzalności pomiarów – dotyczące właściwych sposobów prowadzenia badań i pomiarów, ale także rozpoznające braki wiedzy i zagadnienia wymagające dalszych badań – mogą być szczególnie istotne naukowo i praktycznie, biorąc pod uwagę powszechność w skali międzynarodowej stosowania badanych narzędzi oceny.

Cele pracy, zarówno cel ogólny, jak i cele szczegółowe, zostały dokładnie określone i opisane. Dyskusja wyników jest adekwatna i dojrzała; występuje – istotna dla interpretacji i wykorzystywania wyników przedstawianych badań – dyskusja mocnych i słabych stron badań.

Uwagi i propozycje

Piśmiennictwo i zastany stan wiedzy. Autorka, zarówno w uzasadnieniu podjęcia problematyki, w rozdziale wprowadzającym do zagadnienia, jak i w dyskusji wyników pracy, odwołuje się do bogatego i adekwatnie dobranego piśmiennictwa, nie tylko do najnowszych publikacji, ale także do prac z lat 1938 i 1929 (a nawet publikacji Adamsa z roku 1882). Można jedynie wskazać na pewne kwestie metodologiczne – do dalszej pracy badawczej – dotyczące sposobu określania przez Doktorantkę zastanego stanu wiedzy na badany temat budzi tradycyjny – deklaracyjny – sposób określenia liczby dostępnych publikacji naukowych i stanu wiedzy na badany temat. Brakuje nieco informacji o sposobie wyszukiwania publikacji, kryteriach selekcji prac i analizy ich jakości metodologicznej i syntezy wyników, ewentualnie informacji o dostępności lub jej braku badań wtórnych (przeglądów systematycznych lub podobnych opracowań) na badanych temat. Nie jest

zatem pewne, czy w pracy nie zostały pominięte jakieś istotne publikacje oraz jaka była wiarygodność wyników badań innych autorów, do których Autorka się odnosiła.

Terminologia. Kwestią nieco niejasną jest używanie przez Doktorantkę określenia *skolioza idiopatyczna* dla objętej badaniem grupy dzieci i młodzieży, a nie określenia *młodzieńcza skolioza idiopatyczna* lub ewentualnie podziału na skoliozy młodzieńcze i dziecięce. Oczywiście w piśmiennictwie – także szeroko cytowanym przez Autorkę – występują, niekiedy wymiennie, obydwa określenia. Także przedziały wiekowe podgrup badanych osób (A i B) i odchylenia standardowe wskazują, że tylko pojedynczy uczestnicy byli w wieku poniżej 10 lat; ponadto, u prawie wszystkich dziewcząt wystąpiła *menarche*. W klasyfikacji Scoliosis Research Society, a także w Międzynarodowej klasyfikacji Chorób i Problemów Zdrowotnych (ICD-10) występuje rozróżnienie idiopatycznej skoliozy dziecięcej i idiopatycznej skoliozy młodzieńczej (wieku dojrzewania). Spotyka się także określenie „młodzież ze skoliozą idiopatyczną”. Autorka nie zastosowała tego podziału, jak można wnioskować na podstawie zamieszczonych w pracy charakterystyk badanych grup, zapewne ze względu na objęcie badaniami również dzieci poniżej 10 r. ż., a także na przypuszczalny brak związku tego podziału z badanym zagadnieniem. Natomiast w dalszych dociekaniaх wskazane byłoby ewentualne doprecyzowanie i wyjaśnienie co do stosowanych klasyfikacji i nazewnictwa, także w kontekście cytowanego i dyskutowanego piśmiennictwa (niektóre publikacje badań, dyskutowane jako dotyczące skolioz idiopatycznych, odnosiły się do młodzieńczej skoliozy idiopatycznej).

Przebieg badania i interpretacja wyników pomiarów. W prezentowanych badaniach średnie wartości błędu pomiaru wyniosły 1.3 – 2.1° i 2.2 – 3.4° odpowiednio dla powtarzalności wewnętrznej i zewnętrznej. Autorka – słusznie – dokonała także analizy rozkładu tej cechy (m. in. rycina 28), wskazując, że u 48 i 33 badanych zmienność dobową kąta rotacji wyniosła odpowiednio 2 i 3°, natomiast u niektórych badanych wyniosła nawet od 5 do 8°. Nie jest natomiast w pełni jasne, czy wykazana przez Doktorantkę zmienność dobową kąta rotacji $\geq 3^\circ$ u 58.1% badanych została wyliczona z uwzględnieniem możliwego błędu pomiaru. Doktorantka zauważa i wskazuje w dyskusji wyników badania, a także w podsumowaniu (punkt 5), że średnie wartości zmienności dobowej kąta rotacji mogą mieścić się w granicach błędu pomiarowego. Co więcej, Autorka trafnie zauważa w dyskusji wyników pracy analogiczne zagadnienie, dotyczące zmienności wyników i błędów pomiaru kąta Cobb'a oraz wnioskowania co do rzeczywistej progresji skrzywienia. We wniosku nr 1 Autorka stwierdza natomiast, że cyt. „dobowa zmienność kąta rotacji tułowia u większości dzieci wykazuje wartości istotne klinicznie”. Jednoznaczny komunikat co do tej kwestii – czy obserwowana zmienność dobową świadczy o rzeczywistej dobowej zmienności kąta rotacji tułowia, czy też mieści się w granicach błędu pomiaru, lub też czy występuje znamienna zmienność międzypersonalna, w kontekście czułości i specyficzności badania i konsekwencji fałszywie dodatnich oraz fałszywie ujemnych rozpoznań, byłby wskazany. Być może kwestia ta wymaga dalszych badań, a prezentowane badanie wskazuje na ten problem, co także stanowi wartościowe dokonanie. Tym bardziej, że uzyskane w pracy wyniki uwzględniają liczne, trafnie dobrane, z właściwym uzasadnieniem, czynniki moderujące – lokalizacja skrzywienia, występowanie nadmiernej ruchomości stawów, wielkość skrzywienia kręgosłupa, liczba łuków skrzywienia, stopień dojrzałości kostnej.

Cele i schemat badań. Autorka *de facto* połączyła w jednej pracy dwa rodzaje badania – (1) badanie dokładności / precyzji testu i (2) badanie dobowej zmienności rotacji tułowia. Te dwie – dotyczące tego samego zjawiska, ale jednak odrębne – kwestie zostały przeprowadzone w kolejności,

a ich wyniki umiejętnie skonfrontowane (zwłaszcza w analizie związku błędu pomiaru z mierzonymi różnicami kąta rotacji tułowia w kolejnych pomiarach). Jako cel główny badania (rozdział 4.2) Doktorantka podaje cyt. „określenie zmienności kąta rotacji związanej z porą dnia i z ustawieniem badanego podczas pomiaru...”. Tymczasem, jak wynika z pracy, w tym z przedstawianej w niej interpretacji i dyskusji, wydaje się, że równie istotnym celem pracy było także określenie zmienności wyników pomiarów kąta rotacji, a nie wyłącznie zmienności kąta rotacji – chodziło o ocenę dokładności testu i ocenę zmienności kąta rotacji. W rozdziale Dyskusja Autorka przedstawia swój projekt badawczy jako składający się z badania wstępnego (określanie trafności pomiarów) i badania właściwego – pomiarów kąta rotacji w różnych godzinach dnia. Píše też, że badania poprzedzono pilotażem. Moim zdaniem, jak wspominałem już powyżej, badanie składało się de facto z dwóch równowartościowych faz, a wyniki badania trafności pomiarów (wewnętrznej i zewnętrznej) mogą być same w sobie wartościowym efektem dociekań Doktorantki. Badanie wstępne – pilotaż metody, był także – wartym odrębnego i bardziej szczegółowego raportu – istotnym elementem badania.

Badanie pilotażowe. Doktorantka wspomina w pracy, że przeprowadziła badanie pilotażowe / badanie metody (*feasibility study*) dla testowania metody pomiaru kąta rotacji tułowia, na stosunkowo licznych próbach 30 i 27 badanych, odpowiednio w kolejnych godzinach dnia i w różnych pozycjach ciała badanych podczas pomiarów. Jest to element przeprowadzonego badania istotny metodologicznie i znaczący w kontekście celności formułowanych wniosków z badań. Autorka wspomniała o przeprowadzeniu badania wstępnego (pilotażowego) dwukrotnie – najpierw w podrozdziale 6.11. pt. „Opracowanie wyników projektu badawczego” – w dwóch zdaniach, następnie w rozdziale Dyskusja (str. 100), w części jednego zdania. Wydaje się, że ten – istotny metodologicznie – element badania, mógłby zostać bardziej dokładnie opisany, wraz z opisem badania, materiału, wynikami i wnioskami, najlepiej w odrębnym rozdziale (podrozdziale). Tym bardziej, że dokładne, częściowo nowatorskie, ale odpowiednio uzasadnione, przygotowanie metody badania jest widoczne w pracy, w opisach metod, zastosowań własnych udoskonaleń technik pomiarów (stoper do kontrolowania czasu pozostawiania badanego w skłonie, mata pomiarowa do kontrolowania właściwego ustawienia kończyn dolnych) i na rycinach, właściwie ilustrujących sposoby wykonywania pomiarów. Jest to o tyle istotne, że pozwala lepiej ocenić przebieg badania, dokładność pomiarów, kontrolować czynniki mogące wpływać na zmienność i powtarzalność ich wyników, a także pozwoli na prowadzenie dalszych badań, także przez innych badaczy.

Wykonanie i interpretacja wyników pomiarów. Pomiary były prowadzone przez samą Badaczkę. W kolejnych dociekaniach wydaje się, że jednak mogłaby to być osoba inna niż autor badania. Chodzi o wyeliminowanie potencjalnego zjawiska błędu systematycznego detekcji (*detection bias*), kiedy mierzone / obserwowane różnice mogą być wynikiem wiedzy oceniającego o oczekiwanym wyniku lub dążenia do jego uzyskania (np. chęci – lub nawet działania nieuświadomionego – wykazania różnic), a nie wynikiem faktycznego występowania tych różnic. Uwaga ta dotyczy także badania powtarzalności zewnętrznej testu.

Opis próby i organizacji badań. Opis i wyjaśnienie organizacji badania, zwłaszcza podziału badanych osób na grupy badane A i B, jest częściowo niekonsekwentny. Autorka w rozdziale Materiał przedstawia podział badanych na grupę badaną A i grupę badaną B, a w grupie badanej B wymienia dzieci bez skoliozy (30 z 97 dzieci). Natomiast charakterystyki opisowe podawane są wyłącznie dla 67 dzieci ze skoliozą (czyli części osób z grupy badanej B według podziału z rozdziału Metodyka), określanych jako cyt. „grupa badana”. W rozdziale Metodyka Doktorantka wymienia kryteria

włączenia do grupy badanej i do grupy kontrolnej – nie ma więc podziału na grupę badaną A i grupę badaną B, a jest wymieniona grupa kontrolna. W podrozdziałach 6.11.1 i 6.11.2 podano informacje o podzieleniu grup badanych (A i B – część grupy złożona z dzieci ze skoliozą) na podgrupy. Mimo, że w dalszej części opisu zamieszczono wyjaśnienia, nie jest w pełni czytelny podział grupy A ($n=124$) na podgrupy o liczebności $n=156$ i $n=116$ (odpowiednio kryteria lokalizacji łuków i stopnia dojrzałości kostnej) i grupy B ($n=67$ – dzieci ze skoliozą) na podgrupy o liczebności $n=96$ (kryteria lokalizacji łuków i kierunku skrzywienia). W dalszej pracy badawczej i publikacyjnej wskazane byłoby bardziej spójne opisywanie (i najlepiej także przedstawienie graficzne – schematyczne) podziału na grupy i przebiegu badania w poszczególnych grupach, zwłaszcza jeżeli niektóre badania były wykonane u wszystkich badanych, a niektóre w poszczególnych grupach, a grupy były dzielone na podgrupy. Warto byłoby także wyjaśnić, dlaczego dla jednej grupy wprowadzono grupę kontrolną, a dla drugiej nie.

Opis badania hipermobilności stawów nie jest do końca jasny. Według opisu badania w podziale na grupy (strona 46), test Beightona wykonano dla grupy A, natomiast wyniki podano dla grup A i B.

Kryteria włączenia i wyłączenia, badanie chłopców i dziewcząt. Nie jest jasne, na jakiej podstawie określano brak skoliozy u dzieci z grupy kontrolnej; czy podane kryteria wyłączenia dotyczą także grupy kontrolnej? W rozdziale materiał Doktorantka podaje, że wszystkie grupy składały się z dziewcząt i z chłopców. Natomiast zawarte w tabelach 4 – 8 charakterystyki grup nie uwzględniają podziału na płeć. Wydaje się, że – zwłaszcza w kontekście znaczenia czynnika płci w skoliozach idiopatycznych – wyjaśnienie przyczyn odstąpienia od podziału na płeć w prowadzonych analizach mogłoby znaleźć się w pracy.

Istotności różnic i analiza statystyczna. Doktorantka badała istotności statystyczne różnic poszczególnych parametrów (wartości p). Natomiast warto zaznaczyć, że oprócz badania istotności statystycznej różnic (która nie musi oznaczać różnicy istotnej klinicznie), Autorka badała występowanie różnic klinicznych wartości pomiarów kąta rotacji tułowia (3°). W dyskusji i wnioskach z badań Doktorantka skupia się właśnie na istotności klinicznej, a nie na istotności statystycznej, co jest warte zauważenia. Autorka wprowadziła podział grup ze względu na wartość graniczną skrzywienia 25° w pomiarze według Cobb'a (strona 64) – jak można sądzić, przyjętą w pracy jako związaną ze wzrastającym ryzykiem progresji skrzywienia. W dalszej pracy naukowej warto będzie takie informacje i wyjaśnienia zamieszczać, nie pozostawiając ich w domyśle.

Poprawność formalno-językowa, stylistyczna i interpunkcyjna. Praca o szczegółowej, ale logicznej, konsekwentnej i właściwej – typowej dla prac badawczych – strukturze, Manuskrypt pracy został przygotowany bardzo starannie. Praca jest właściwie pozbawiona omyłek pisarskich. Edycja i formatowanie są właściwe, układ rozdziałów i podrozdziałów, a także opracowanie wykresów, tabel i rycin są dokładne, odpowiednie i typowe dla nowoczesnych opracowań. Ryciny i tabele są odpowiednio liczne, adekwatne i starannie opracowane oraz opisane, z dodatkowymi spisami rycin i tabel na końcu woluminu.

W tekście można doszukać się pojedynczych i mało znaczących potknięć stylistycznych. Doktorantka stwierdza, że „badany otrzymywał 0 lub 1 punkt”, a nie np. *hipermobilność oceniano na 0 lub 1 punkt*), a określając oczekiwane wyniki badania (rozdział 4.4), podaje, że poznanie źródeł zmienności pomiarów i przyczyn zmienności kąta rotacji pozwolą specjalistom „(...) prowadzić wiarygodne badania, zarówno przesiewowe, jak i kliniczne (...)”. Moim zdaniem należałoby zastosować określenie

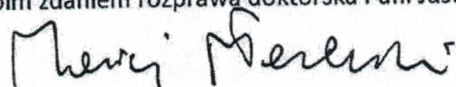
bardziej wiarygodne. Chodzi o zwiększanie wiarygodności testowania, a nie jej uzyskiwanie. W rozdziale Dyskusja zamiast „powtarzalność zewnętrzna i wewnętrzna kąta rotacji” powinno być „powtarzalność wyników pomiarów kąta rotacji. Ponadto, może pozostać przy określeniu „Aneks” lub „Aneksy” zamiast „Załączniki” (ale to jedynie spostrzeżenie co do akademickiej tradycji).

Konkluzja

Zgodnie z art. 13.1 Ustawy o stopniach naukowych i tytule naukowym oraz o stopniach i tytule w zakresie sztuki, cyt. „Rozprawa doktorska [...] powinna stanowić oryginalne rozwiązanie problemu naukowego lub oryginalne dokonanie artystyczne oraz wykazywać ogólną wiedzę teoretyczną kandydata w danej dyscyplinie naukowej lub artystycznej oraz umiejętność samodzielnego prowadzenia pracy naukowej lub artystycznej.”

Recenzowana dysertacja spełnia jednoznacznie powyższe wymogi ustawowe. Doktorantka podjęła się rozwiązania istotnego problemu naukowego i kompetentnie zaprojektowała i zrealizowała badanie służące jego rozwiązaniu, a sposób zdefiniowania problemu i jego przedstawienia oraz prowadzenia wywodu naukowego świadczą o zaawansowanej znajomości i rozumieniu poruszanej problematyki oraz o sporej dojrzałości naukowej.

Moim zdaniem rozprawa doktorska Pani Justyny Błody zasługuje na wyróżnienie.



dr hab. prof. AWF Maciej Płaszewski