

RECENZJA rozprawy doktorskiej mgr Witolda Serafina pod tytułem:
„Ocena stopnia odzyskiwania energii podczas chodu chorych na chorobę Huntingtona w
porównaniu z wynikami chodu fizjologicznego grupy kontrolnej”.

Podstawa opracowania recenzji

Poniższa recenzja została przeprowadzona na podstawie uchwały Rady Naukowej Akademii Wychowania Fizycznego im. Bronisława Czecha w Krakowie z dnia 19 września 2024 r. Praca doktorska Pana mgr Witolda Serafina została przygotowana pod kierunkiem promotora rozprawy doktorskiej dr hab. Wiesława Chwały prof. AWF oraz promotora pomocniczego dr hab. Elżbiety Mirek prof. AWF.

Struktura opracowania, zgodność treści z tematem

Przedstawiona do recenzji rozprawa doktorska liczy łącznie 93 strony. Właściwa część pracy w tym wstęp, cel i założenia pracy, materiał i metody, wyniki, dyskusja, wnioski i piśmiennictwo zajmują 85 stron. Pozostałe elementy pracy to streszczenie w języku polskim i angielskim, wykaz skrótów, spis rycin i tabel. W pracy nie zamieszczono kopii zgody Komisji Bioetycznej. Opracowanie posiada typowy układ charakterystyczny dla pracy eksperymentalnej. W pracy zamieszczono 28 rycin i 7 tabel dokumentujących uzyskane wyniki. Układ oraz zawartość rozdziałów są odpowiednie.

Wstęp, stanowią rozdziały obejmujące wprowadzenie do podejmowanych zagadnień oraz cel pracy, wraz z pytaniami badawczymi oraz hipotezy badawcze. Wstęp stanowi 24% zasadniczej części pracy, materiał i metody badań oraz opis analiz statystycznych zajmują ok. 12% objętości, prezentacja wyników obejmuje 40% pracy, a dyskusja i wnioski stanowią 23% objętości pracy właściwej. Streszczenie w języku polskim i języku angielskim odpowiadają określonym rozdziałom pracy właściwej.

W opinii recenzenta zarówno struktura, jak i proporcje głównych części rozprawy są prawidłowe, a część empiryczna stanowi 2/3 jej objętości.

W rozdziale piśmiennictwo Autor zamieścił 89 pozycji w tym 11% pozycji to opracowania z okresu od roku 2019 do chwili obecnej, a 89% sprzed 2019 roku. Piśmiennictwo zostało prawidłowo dobrane i cytowane.

Tytuł rozprawy „Ocena stopnia odzyskiwania energii podczas chodu chorych na chorobę Huntingtona w porównaniu z wynikami chodu fizjologicznego grupy kontrolnej” w pełni odzwierciedla zawarte w rozprawie treści.

Układ pracy i kolejność rozdziałów jest prawidłowa. Praca jest kompletna o prawidłowej zawartości rozdziałów i typowych proporcjach rozdziałów. Praca jest przejrzysta. Wszystkie tabele i ryciny przygotowano starannie na dobrym poziomie edytorskim co powoduje, że są bardzo czytelne dla odbiorcy. Autor precyzyjnie opisał wszystkie tabele, a ich zawartość jest zgodna z opisem. Ryciny dobrze ilustrują treść opisaną w tekście.

Podsumowując powyższe, recenzent nie zgłasza istotnych uwag dotyczących formalnej strony niniejszej pracy.

Ocena merytoryczna rozprawy

Przedmiot i cel naukowy rozprawy

Choroba Huntingtona (HD) klinicznie charakteryzuje się mimowolnymi ruchami, objawami psychiatrycznymi i postępującą demencją. Ponadto HD wykazuje istotne, negatywne zamiany funkcji chodu, w tym zmniejszoną prędkość chodzenia, trudności z inicjacją kroku oraz zmienny wzorzec cyklu chodu. W miarę postępu choroby mobilność pogarsza się nie tylko z powodu rozwoju hiperkinezji, takiej jak pląsawica, ale również z powodu parkinsonowskiej bradykinezji. Pogorszenie mobilności z powodu problemów z chodem jest związane z upadkami pacjentów z zaawansowaną HD, co dodatkowo zmniejsza wydolność funkcjonalną.

Ocena funkcjonalna jest nieodzownym elementem badania. Zaburzenia kontroli postawy ciała i chodu mogą pojawić się nawet w fazie przedobjawowej choroby, a w miarę jej postępu dysfunkcja chodu może stać się znaczącym źródłem niepełnosprawności i negatywnie wpływać na ogólną jakość życia.

Ocena kliniczna postawy i chodu jest z natury subiektywna, a skale ocen mogą nie odzwierciedlać zachowań motorycznych w domu lub niewielkich zmian w czasie.

Obiektywne pomiary równowagi i chodu przy użyciu technologii wyłoniły się jako obiektywny i czuły sposób oceny i rozróżniania stanów chorobowych. U osób z HD w badaniach posturograficznych wykryto zaburzenia równowagi statycznej i dynamicznej w okresie przed i po wystąpieniu objawów. Jednocześnie wykazano umiarkowaną zależność

równowagi ciała z ciężkością choroby. Ilościowe badania chodu przy użyciu maty GAITRite pozwoliły na wykazanie różnicy pomiędzy wzorem chodu osób z HD, a wzorcem chodu osób zdrowych. Trójwymiarowe systemy analizy ruchu mogą być również stosowane jako skuteczne narzędzie do pomiaru efektów interwencji.

Chociaż istnieje duża liczba opisów klinicznych chodu w HD to ilościowe pomiary dysfunkcji chodu mogą stanowić bardziej czuły marker postępu choroby. Obecnie brakuje w ocenie funkcjonalnej chorych z HD nieinwazyjnego biomarkera do monitorowania zmian funkcji chodu wywołanych chorobą i monitorowania efektów interwencji rehabilitacyjnych.

Problem badawczy podjęty przez Doktoranta jest więc atrakcyjna zarówno w zakresie poznawczym jak i aplikacyjnym.

Ilościowe oceny chodu chorych z HD głównie wykorzystują analizę parametrów czasowo-przestrzennych uzyskiwanych z czujników umieszczanych w podłożu lub na ciele badanego. Wyniki badań wykazywały zmniejszanie się wraz z postępem choroby prędkości chodu, kadencji, wydłużenia czasu cyklu i czasu podwójnego podporu. Pogarszanie parametrów czasowych i przestrzennych chodu osób z HD koreluje z nasileniem objawów choroby i sprawnością funkcjonalną chorych. Wykazano, że w okresie przedobjawowym HD nie ma różnicy w wyniku testów klinicznych pomiędzy chorymi a osobami zdrowymi. Wykazano natomiast różnice w zakresie parametrów ilościowych chodu pomiędzy chorymi z HD i osobami zdrowymi. W niewielu badaniach analizie poddano parametry kinematyczne chodu. Trudność analizy 3D może wynikać z dużej zmienności zakresu ruchu pomiędzy poszczególnymi cyklami, a więc powtarzalności oceny i możliwości porównań. Należy podkreślić, że zmienność zakresu ruchu charakteryzuje się dużą rozpiętością pomiędzy maksymalnym i minimalnym zakresem ruchu w cyklu.

W związku z powyższym temat i cel rozprawy jest bardzo interesujący. Ma dużą wartość poznawczą.

Wstęp

W pierwszym rozdziale Wstęp podzielonym na podrozdziały 1) wprowadzenie, 2) choroba Huntingtona, 3) charakterystyka chodu fizjologicznego, 4) mechanizmy kontroli przemieszczeń środka ciężkości ciała, 5) mechanizm odzyskiwania energii w modelach analizy chodu, 6) rodzaje pracy mechanicznej w chodzie oraz metody szacowania energii mechanicznej Autor w sposób interesujący i systematyczny dokonuje wprowadzenia w tematykę pracy i uzasadnia potrzebę podjęcia badań w przyjętym zakresie. W wprowadzeniu omówiono metody oceny chodu począwszy od metod opisowych do metod ilościowych. Stosowanie metod

obiektywnych w ocenie chodu takich jak analiza 3D, jest trudne choćby z powodu decyzji który parametr będzie najbardziej trafny do celu badania. Rozwiązaniem mogą być indeksy chodu jak GDI czy VGI dzięki którym możliwe jest całościowe spojrzenie na wynik trójwymiarowej oceny chodu. Indeksy jako liczba, są wynikiem analizy wybranych zakresów ruchu w stawach kończyn dolnych i miednicy (GDI) lub analizy wybranych parametrów czasowo – przestrzennych (GVI).

W wstępie w sposób syntetyczny przedstawiono główne informacje o HD oraz charakterystykę zaburzeń ruchowych w poszczególnych fazach choroby. Charakterystyka chodu fizjologicznego to wyczerpujący podrozdział opisujący wzorzec z szczególnym naciskiem na analizę przemieszczania środka ciężkości ciała i mechanizmy kontroli przemieszczeń środka ciężkości ciała. Mimo, że praca mięśni podczas chodu nie jest przedmiotem badania to omówienie jest zasadne w odniesieniu do kolejnych podrozdziałów opisujących mechanizm odzyskiwania energii w modelach analizy chodu oraz rodzaje pracy mechanicznej w chodzie.

Wstęp jest wyczerpujący, szczegółowo opisuje istotne dla tematu zagadnienia. Oparty jest na przeglądzie piśmiennictwa, dobrze dobranego i aktualnego.

Cel pracy

Autor za główny cel przyjął oszacowanie wartości składowych (energii potencjalnej i kinetycznej) oraz sumarycznej pracy zewnętrznej, służącej unoszeniu i rozpędzaniu OSC, stopnia odzyskiwania energii mechanicznej w modelu odwróconego wahadła o zmiennej długości podczas chodu chorych z HD przed i po oddziaływaniu terapeutycznym, oraz porównanie ich wartości do wyników osób zdrowych poruszających się z naturalną prędkością. Pośrednim celem pracy było określenie przestrzennego wzorca przemieszczenia ogólnego środka ciężkości ciała u chorych z HD, znajdujących się we wczesnym lub środkowym stadium choroby i porównanie go z wzorcem przemieszczenia OSC osób zdrowych.

Problem badawczy został dobrze zidentyfikowany. Cele poznawcze są innowacyjne, a wyniki mogą stanowić istotne uzupełnienie stanu wiedzy. Założone cele pracy wyczerpują problem badawczy co potwierdza moim zdaniem, że dobór celów jest bardzo dobry. Uważam również, że w ujęciu aplikacyjnym cel pracy dotyczący zidentyfikowania charakterystycznych dysfunkcji i wspólnych cech chodu chorych na HD oraz, sformułowanie wskazówek do reedukacji chodu chorych z HD jest bardzo istotny.

Doktorant sformułował trzy hipotezy. Hipotezy w ocenie recenzenta są bardzo ogólne. Założenie, że schemat przestrzennych przemieszczeń środka ciężkości ciała w chodzie

patologicznym chorych na HD różni się od wzorca fizjologicznego podobnie jak druga hipoteza może być zawarte tylko w pytaniach badawczych bez konieczności formułowania hipotez

Materiał i metody

Do zrealizowania celu przeprowadzono badanie w grupie chorych rekrutowanych do projektu Registry, zarejestrowanych w European Huntington's Disease Network. Kwalifikację do badania i ocenę stanu neurologicznego wykonano w Klinice Neurologii CMUJ, a ocenę chodu w Pracowni Biokinetyki Zakładu Biomechaniki w Akademii Wychowania Fizycznego w Krakowie. Do badania włączono 30 chorych spełniających kryteria kwalifikacji. Nie opisano jednak sposobu rekrutacji co wymaga wyjaśnienia. Omówienia wymaga również sposób rekrutacji i kryteria włączenia osób zdrowych. W kryteriach założono, że włączeni do badania będą chorzy we wczesnym lub środkowym stadium choroby (TFC I, II). Proszę o dyskusję czy w kolejnych analizach nie należy podzielić grupy na osobne stadia choroby. W ten sposób można odpowiedzieć na pytania jakie są szczegółowe zmiany wzorca chodu w przebiegu choroby.

Program rehabilitacji obejmował łącznie około 90 minut dziennie. Proszę o informacje czy chorzy byli leczeni w oddziale rehabilitacji czy byli pacjentami kliniki neurologii. Ile zrealizowano sesji z fizjoterapeutą, 21 czy 15 (od poniedziałku do piątku w kolejnych 3 tygodniach). To ważne informacje dla odpowiedzi na pytania dotyczące oddziaływania rehabilitacji na potencjalną zmianę wzorca chodu.

Ocenę chodu wykonano dwukrotnie przed i po zakończeniu rehabilitacji. Badanie wykonano z wykorzystaniem systemu 3D (System Vicon 512 z pięcioma kamerami IR). Pasywne markery zlokalizowano na wszystkich segmentach ruchowych ciała zgodnie z wykazem. Procedura badania, opracowania danych, wygenerowania parametrów kinematycznych przeprowadzona została zgodnie z procedurą. Obliczono położenie ogólnego środka ciężkości ciała w cyklu chodu oraz kątów w stawach, zmian położenia przyczepów mięśniowych, parametrów czasowo – przestrzennych, prędkości oraz przyspieszenia OSC. Przestrzenne położenia i przemieszczenia OSC obliczono na podstawie danych kinematycznych. Obliczając zmienne prędkości przemieszczenia OSC oraz energię potencjalną, kinetyczną względem osi strzałkowej, energię całkowitą oraz wskaźniki odzyskiwania energii w poszczególnych procentach cyklu chodu, wartości zmian energii potencjalnej, kinetycznej i całkowitej OSC w cyklu chodu, współczynniki odzyskiwania energii w cyklu chodu.

Opisane i użyte metody statystyczne są dobrze dobrane i pozwalają na prawidłowe wnioskowanie.

Wyniki

Wyniki analiz stanowią merytorycznie najważniejszą część rozprawy. Doktorant zaprezentował je w postaci tabel i rycin. Kolejno przedstawiono wyniki w podrozdziałach: 1) analiza pionowych i bocznych standaryzowanych zmian położenia OSC w cyklu chodu, 2) analiza zmian wartości energii standaryzowanych względem masy ciała i długości cyklu chodu, 3) analiza wyników transformacji energii kinetycznej i potencjalnej w badanych grupach osób w cyklu chodu, 4) analiza wykresów podobieństwa profili krzywych składowych oscylacji OSC oraz składowych energii mechanicznej w badanych grupach osób.

Każdy podrozdział podzielono na części w których przedstawiano wynik w formie wykresu, analizy statystycznej analizowanych parametrów. Rozdział ten jest bardzo obszerny, stanowi 40% objętości pracy. Liczba poddanych analizie parametrów jest zgodna z celem i pytaniami badawczymi. Autor nie uniknął drobnych błędów edytorskich w pierwszym podrozdziale wyników dwukrotnie podpisano innymi tytułami Rycinę 4.1, nie dając przy tym odnośnika w tekście. Wprowadzenie legendy do każdej z tabel i rycin znacznie ułatwiłoby czytanie treści wyników. Wyniki mimo dużej liczby parametrów, złożoności opisu przedstawiane są bardzo konsekwentnie i czytelnie. Doktorant wykazał się umiejętnością przeprowadzenia syntezy i interpretacji uzyskanych wyników. Nie mniej jednak ich liczba zmusza czytelnika do dużej uwagi w zapoznawaniu się z ich treścią.

Dyskusja

Analizę uzyskanych wyników badania Doktorant podjął w rozdziale dyskusja. Rozdział napisano bardzo rzeczowo. Stanowi on mocną część pracy, mimo że interpretacja uzyskanych wyników nie należała do najłatwiejszych. Doktorant wykazał się wiedzą, znajomością literatury przedmiotu. Wyniki badania własnego analizowane na tle cytowanych wyników są nową bardzo ważną wiedzą niezbędną w leczeniu i rehabilitacji osób z HD. W pełni i uznaniem zgadzam się z wynikami i uzasadnieniem odpowiedzi na 1 i 2 pytanie badawczy oraz pierwszą część pytania 3. Mam jednak zastrzeżenia do jego drugiej części. Wyniki jednoznacznie wskazują że rehabilitacja przyniosła poprawę poprzez normalizację wyników analizowanych parametrów. Nie można jednak wskazać szczegółów jakie ćwiczenia. W sekcji metoda opis zasadniczej części ćwiczeń był bardzo ogólny „zmobilizowanie rezerw funkcjonalnych, poprawę koordynacji nerwowo-mięśniowej, wytrzymałości i stabilności postawy”.

Interpretacja wyników badania wykazała że „Analiza krzywych wskazuje, że stereotypy zmian położenia OSC w grupach chorych z HD najbardziej odbiegają od schematu chodu fizjologicznego bezpośrednio przed postawieniem stopy na podłożu, w najwyższym punkcie uniesienia OSC w fazie MST oraz pod koniec fazy jednopodporowej TST”. Jest to ważne odkrycie. Dla praktyka jest to jasna uwaga, że główny akcent terapii chodu powinien być stawiany na ten konkretny okres cyklu. Tak więc należy dokładnie opisać metodykę ćwiczeń rehabilitacyjnych, lub ten fakt opisać w niedoskonałościach pracy. Należy wskazać, że przyszłe badania powinny uwzględnić szczegółowe zalecenia dotyczące rehabilitacji będące wynikiem badań. Dyskusję zamyka krótkie podsumowanie oraz sześć wniosków końcowych, które wynikają z przeprowadzonych analiz i odpowiadają na zadane pytania badawcze.

Pytania:

1. Proszę o omówienie sposobu rekrutacji uczestników badania
2. Proszę o omówienie programu rehabilitacji, również w odniesieniu do omówienia wyników i ograniczeń pracy
3. Proszę o dyskusję czy w kolejnych analizach nie należy podzielić grupę na osobne stadia choroby.

Podsumowanie

Przedstawiona do recenzji dysertacja jest ważnym wkładem do stanu wiedzy w zakresie neurologii i rehabilitacji. Praca jest napisana starannie, ciekawym i profesjonalnym językiem oraz jest poparta licznymi publikacjami. Podjęty problem badawczy jest zgodny z dziedziną i dyscypliną, w jakiej Kandydat stara się o uzyskanie stopnia naukowego doktora. Doktorant przedstawił oryginalne rozwiązanie problemu naukowego, wykazał się wysoką wiedzą i umiejętnościami samodzielnego prowadzenia pracy naukowej.

Uważam, że rozprawa świadczy o dużym doświadczeniu w zakresie omawianej tematyki, o znacznym nakładzie pracy oraz rzetelności i umiejętności prowadzenia badań naukowych.

Wysoko oceniam pracę Doktoranta, umiejętność zdefiniowania problemu badawczego i zaplanowanie badania. Wyniki badań są istotnym wkładem do wiedzy i ważnym osiągnięciem aplikacyjnym.

W związku z powyższym, po przeprowadzeniu recenzji rozprawy doktorskiej mgr Witolda Serafina pod tytułem „Ocena stopnia odzyskiwania energii podczas chodu chorych na

chorobę Huntingtona w porównaniu z wynikami chodu fizjologicznego grupy kontrolnej” stwierdzam, że przygotowana rozprawa doktorska spełnia warunki określone w art. 187 ustawy z dnia 20 lipca 2018 r. Prawo o szkolnictwie wyższym i nauce (tj. Dz.U. z 2023 r. poz. 742 ze zm.) i rekomenduję Wysokiej Radzie Naukowej Akademii Wychowania Fizycznego im. Bronisława Czecha w Krakowie o dopuszczenie mgr Witolda Serafina do dalszych etapów postępowania awansowego do stopnia doktora.

Henryk Dąbowski