



Warszawa 24/11/2023

**RECENZJA**  
**rozprawy doktorskiej mgr Joanny Krzeszowiak**  
**pt. „Jakość opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu według modelu**  
**hospicjum perinatalnego”**

W ostatnich 20 latach dzięki ogromnym postępom w diagnostyce prenatalnej i to zarówno obrazowej (aparaty USG najnowszej generacji, możliwość wykonywania rezonansu magnetycznego płodu), jak i badań genetycznych inwazyjnych i nieinwazyjnych (w tym badania wolnego DNA płodowego we krwi matki opierającego się na technice sekwencjonowania następnej generacji-NGS), można już w coraz wcześniejszym okresie ciąży stwierdzić wady płodu, w tym te o charakterze letalnym. Wiele matek, także w krajach, gdzie istnieje prawna możliwość terminacji ciąży, w przypadku „ciężkiego i nieodwracalnego uszkodzenia płodu” decyduje się na jej kontynuację, a dziecko obejmowane jest opieką paliatywną po urodzeniu. Biorąc pod uwagę fakt, że od 20-50% płodów ze stwierdzoną wadą letalną obumiera wewnątrzmacicznie pomoc rodzicom przyszłego dziecka jak i dziecku udzielana jest już w okresie płodowym - stąd rozwój perinatalnej opieki paliatywnej (POP). Ma to bardzo ważne znaczenie, bo jak opisano w Lancecie z 2011 roku problem martwych porodów to „jeden z najbardziej zaniedbanych obszarów zdrowia publicznego, niestety pomijany w światowych programach zdrowotnych”

W Polsce w październiku 2020 roku Trybunał Konstytucyjny wydał orzeczenie, którego konsekwencją jest zakaz przerywania ciąży w przypadku stwierdzenia wad wrodzonych płodu. Wpłynęło to na zwiększenie liczby kobiet, które po prenatalnej diagnozie o letalnym rokowaniu dla dziecka, wymagają profesjonalnej opieki w czasie ciąży i porodu.

Temat jaki podjęła Doktorantka, dotyczący oceny jakości opieki nad rodzicami w tej trudnej sytuacji jest więc bardzo aktualny. Dodatkowo godnym podkreślenia jest to, że Doktorantka jest położną, a więc osobą, która może z bliska obserwować te wyjątkowe momenty



tworzącego się i jednocześnie obumierającego życia dziecka, co wiąże się z traumatycznymi przeżyciami dla rodziców.

Przedstawiona do recenzji praca zawiera 151 stron maszynopisu, 16 tabel, 56 wykresów starannie przygotowanych pod względem graficznym oraz piśmiennictwo zarówno anglojęzyczne jak i w języku polskim (obejmuje 23 strony, ale pozycje są nie numerowane) i streszczenie pracy. Układ rozdziałów pracy jest tradycyjny.

We wstępie (31 stron) Doktorantka umiejętnie wprowadza czytelnika w problematykę przedmiotu badań i uzasadnia swoją motywację do podjęcia tego typu analizy. W pierwszej części autorka przedstawia syntetyczny przegląd aktualnej wiedzy na temat etiologii i epidemiologii wad wrodzonych i ich możliwości diagnostycznych z uwzględnieniem najnowszych metod obrazowania i badań genetycznych. W drugiej części wstępu zawarty jest schemat postępowania po diagnozie prenatalnej choroby płodu o letalnym rokowaniu wraz ze wskazaniem roli hospicjum perinatalnego w tym zakresie. W ostatniej części doktorantka opisuje powstałe w 2013 roku Wrocławskie Hospicjum Perinatalne i podjęcie decyzji o „Programie razem”. Wskazuje się w nim na konieczność działania interdyscyplinarnego od momentu postawienia diagnozy przez położnika i rozpoznaniu wady letalnej aż do śmierci płodu/dziecka lub opieki w hospicjum domowym, jeżeli dziecko przeżyje okres hospitalizacji. Doktorantka w sposób zwięzły, ale jednocześnie szczegółowy opisuje etapy tej opieki oraz poruszane kwestie na kolejnych spotkaniach z rodzicami. Zwraca uwagę dojrzałość Doktorantki w tej tematyce oraz czytając ten fragment rozprawy, jej ogromne zaangażowanie w codzienną pracę w Hospicjum.

Celem głównym pracy jest ocena jakości opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu według przyjętego na terenie Wrocławia i okolic modelu hospicjum perinatalnego.

Wyodrębniono 5 celów szczegółowych:

1. Analiza danych dotyczących stawianych prenatalnie rozpoznań, na podstawie których następuje kwalifikacja do wdrożenia perinatalnej opieki paliatywnej.
2. Analiza dalszych losów ciąży pacjentek nie decydujących się na terminację





3. Analiza oceny jakości sprawowanej opieki nad pacjentkami oczekującymi narodzin dziecka z wadą o charakterze letalnym, w zależności od przyjętego sposobu sprawowanej opieki w danym ośrodku (ośrodek o ustalonym schemacie postępowania oraz inne bez wdrożonego planu opieki)

4. Analiza oceny jakości opieki, na podstawie doświadczeń pacjentek objętych wielospecjalistyczną opieką paliatywno –perinatalną w zakresie: psychologicznym, diagnostycznym, poradnictwa genetycznego, planowania postępowania okołoporodowego oraz opieki neonatologicznej czy wsparcia duchowego.

Postawiono 2 hipotezy badawcze:

1. Rodzice oczekujący narodzin dziecka ze stwierdzoną prenatalnie wadą o charakterze letalnym powinni zostać otoczeni wielospecjalistyczną opieką ukierunkowaną na konkretne potrzeby wynikające z ich sytuacji zarówno medycznej jak i psychologicznej oraz społecznej.

2. Tworzenie zespołów wielospecjalistycznych, tworzonych przez ludzi dostrzegających specyficzne potrzeby pacjentek oczekujących narodzin dziecka ze stwierdzoną prenatalnie wadą letalną powinno być podstawą działania mającego na celu zmniejszenie liczby terminacji ciąży z powodów eugenicznych.

Badaniem objęto rodziców, którzy na etapie ciąży dowiedzieli się o wadzie letalnej płodu o jednoznacznie złym rokowaniu. Wstępnie opieką zostało objętych 78 rodzin, ostatecznie na udział w badaniu zdecydowało się 36 z nich. Doktorantka tłumaczy, że część rodziców, którzy nie zdecydowali się na udział w badaniu argumentowało to „brakiem gotowości na podejmowanie tak trudnego, intymnego i wciąż bolesnego dla nich tematu”. W tym miejscu brakuje mi podania innych przyczyn (wspomina o nich Autorka na początku dyskusji cytując 3 informacje mailowe, ale ich treść jest podobna do w/w zdania). Przede wszystkim jednak brak jest porównania obu tych grup (zgłaszających się i nie na badanie) pod względem wybranych danych społeczno-demograficznych (np. wiek rodziców, wykształcenie, czy posiadają już dzieci, pod czyją opieką pozostawali w czasie ciąży i gdzie odbył się poród itp). Umożliwiłoby to wykazanie, że nie doszło do selekcji populacji badanej. Nie opisano też, czy podjęto próby wysyłania ankiet np. po roku od śmierci dziecka, wtedy może byłoby łatwiej rodzicom rozmawiać na ten temat.



Badanie zostało przeprowadzone w oparciu o 2 ankiety:

- Polska wersja kwestionariusza wpływu stanu zdrowia dziecka na rodzinę (PedsQL Family Impact Module) (Varni et al., 2004).
- Kwestionariusz własnego autorstwa „Jakość opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu według modelu hospicjum perinatalnego”

Chciałabym podkreślić, że ankieta własnego autorstwa, (zamieszczona zresztą w całości na końcu pracy, co daje możliwość szczegółowego zapoznania się z nią) jest bardzo ciekawym dokumentem. Ważnym podkreślenia, wydaje mi się to, że Doktorantka zdecydowała się też zadać rodzicom pytania otwarte, gdyż jak sama podkreśla „tematyka związana z doświadczeniem rodziców w aspekcie opieki w sytuacji stwierdzenia wady letalnej u płodu, jest na tyle różnorodna i indywidualna, że bardzo trudno zawrzeć ją w pewnych gotowych propozycjach na postawione pytania. Pozwala to również na zwrócenie uwagi na te aspekty badanego problemu, które nie były brane pod uwagę lub które nie zostały dostatecznie zauważone”. Świadczy to o dużym doświadczeniu Doktorantki w poruszonym przez nią temacie, a jednocześnie daje możliwość szerszego spojrzenia i oceny jakości opieki nad rodzicami, co było głównym celem tej pracy.

Wyniki pracy przedstawione są na 45 stronach i zawierają, jak wcześniej wspomniałam, 16 tabel i 56 wykresów. Wydaje mi się, że wiele z nich można by połączyć w jedną tabelę (np. wskazania planowe i nagłe do wykonania cięcia cesarskiego) lub wykres (np. wiek ojca i matki), jeżeli poruszane jest to samo zagadnienie.

W podanych wynikach zwróciło moją uwagę bardzo rzadkie wykonywanie rezonansu magnetycznego płodu (jedynie w 2 przypadkach, tab 7). Prawdopodobnie nowa generacja aparatów USG i najnowsze metody badań genetycznych w sytuacji wad letalnych są wystarczające do postawienia ostatecznego rozpoznania.

Ciekawą, choć dla mnie bulwersującym faktem jest to, że rodzice po postawieniu ostatecznego rozpoznania wady letalnej u ich dziecka, informację o możliwości objęcia ich opieką przez hospicjum perinatalne częściej dowiadywali się o tym od lekarza genetyka, albo szukali informacji na własną rękę (materiały prasowe, audycje radiowe) niż od lekarza, który





# Instytut Matki i Dziecka

Dr hab. n med. Prof IMiD Magdalena Rutkowska  
Zakład Epidemiologii i Biostatystyki

---

Institute of Mother and Child  
L'Institut de la Mère et de l'Enfant

wadę rozpoznał, czyli ginekologa. Czy to nie on pierwszy powinien przedstawić rodzicom ten sposób opieki?

Ważną informacją, potwierdzającą spostrzeżenia innych szpitali jest to, że większość, bo aż 91% noworodków z wadą letalną umarło w szpitalu (w pierwszej albo późniejszych dobach życia), jedynie 2 dzieci było przekazanych pod opiekę hospicjum domowego (wykres 18, tabela 10). Wynika z tego, że szpitale, które specjalizują się w diagnostyce prenatalnej wad wrodzonych powinny być dodatkowo dofinansowywane zarówno w wysoko specjalistyczny sprzęt, ale także w pomoc psychologiczną dla personelu medycznego zajmującego się rodzicami zarówno w okresie płodowym jak i po urodzeniu się dziecka oraz powinny być prowadzone dodatkowe kursy doszkalające z zagadnień etycznych dotyczących śmierci i końca życia. Bez tej pomocy narażamy lekarzy, pielęgniarki i położne na przedłużający się stres i wynikające z niego konsekwencje albo na szybkie wypalenie zawodowe.

Budującą informacją jest to, że w 92% przypadków neonatolodzy, po rozmowie z rodzicami podjęli decyzję o zakwalifikowaniu noworodka do opieki paliatywnej, czyli odstąpili od tzw. leczenia daremnego. Jest to zgodne z obowiązującymi Standardami „Zasady podejmowania decyzji o wszczęciu postępowania paliatywnego w neonatologii” zalecanymi przez Polskie Towarzystwo Neonatologiczne, którego ostatnie V już wydanie ukazało się w sierpniu 2023 roku.

W ostatniej części wyników oceniana była przez rodziców pomoc jaka została im udzielona w okresie perinatalnym, informacje jakie zostały im przekazane, ustalenia postępowania w okresie ciąży i w końcu ich wdrażanie w okresie okołoporodowym. Bardzo wysoko oceniono rozmowę z ginekologiem, neonatologiem i genetykiem, ale także z położną. Sposób prowadzenia rozmów, założenie karty, w której odnotowywane były wszystkie informacje o stwierdzonej patologii u dziecka, dołączenie wyników badań (w tym genetycznych) i ustalenie planu działania, który w większości był respektowany po urodzeniu się dziecka - to te najwyżej oceniane przez rodziców działania. Doktorantka, dobierając odpowiednio pytania w swojej ankiecie bardzo dobitnie pokazuje jak wielkie znaczenie ma opieka interdyscyplinarna rozpoczynająca się we wczesnym okresie ciąży i trwająca aż do porodu, a fakt, że przy porodzie



obecna jest położna, którą rodzice znają już w okresie prenatalnym ma dla nich na pewno ogromne znaczenie psychologiczne i jest ułatwieniem w późniejszym przeżywaniu żałoby.

Dyskusja choć krótka, bo prowadzona na 15 stronach, jest ciekawa, ponieważ odnosi się zarówno do piśmiennictwa europejskiego jak i amerykańskiego, jak i dzięki bezpośrednim cytatom opinii matek (rodziców) na wybrane tematy zamieszczenie w ankiecie, bardzo ją uwiarygadnia. Doktorantka podkreśla, że problem opieki nad matkami, które usłyszały w gabinecie, że ich dziecko będzie się nieprawidłowo rozwijać dotyczy w Polsce ok 10 tys ciężarnych. Zaplanowanie i zorganizowanie prawidłowej opieki, jak podkreśla Autorka, „oswaja rodziców z bolesnym tematem powitania i pożegnania dziecka”, a ciągłość tej opieki zapewnia bezpieczeństwo.

Pionierską formą wsparcia, opisaną w danej mi do oceny dysertacji, była opieka położnej koordynującej pracę wszystkich innych podmiotów od momentu rozpoznania wady przez położnika, poprzez organizację pomocy w okresie perinatalnym, obecności przy porodzie i pożegnaniu dziecka, jeżeli umrze w pierwszych godzinach po urodzeniu. Wykazanie, cytując opinie rodziców, jakie miało to dla nich znaczenie, dobitnie wskazuje, że brak położnej w polskim systemie perinatalnej opieki paliatywnej jest poważnym błędem i powinien być naprawiony przy tworzeniu nowych ustaw w tym temacie.

W podsumowaniu stwierdzam, że na szczególne podkreślenie w dyskusji zasługują elementy poznawcze, wynikające z pracy, mogące mieć istotne znaczenie dla praktyki klinicznej.

Wyniki badań odpowiedziały na główne cele i umożliwiły sformułowanie ostatecznych wniosków w liczbie 6. Uważam jedynie, że Doktorantka nie mogła w pełni zrealizować celu 3 (Analiza oceny jakości sprawowanej opieki nad pacjentkami oczekującymi narodzin dziecka z wadą o charakterze letalnym, w zależności od przyjętego sposobu sprawowanej opieki w danym ośrodku (ośrodek o ustalonym schemacie postępowania oraz inne bez wdrożonego planu opieki) biorąc pod uwagę fakt, że większość analizowanych ciąż i porodów (75%) odbyła się w Uniwersyteckim Szpitalu Klinicznym im. Jana Mikulicza-Radeckiego we Wrocławiu gdzie utworzono Hospicjum Perinatalne i „Program Razem”.





# Instytut Matki i Dziecka

Dr hab. n med. Prof IMiD Magdalena Rutkowska  
Zakład Epidemiologii i Biostatystyki

---

Institute of Mother and Child  
L'Institut de la Mère et de l'Enfant

Z obowiązku recenzenta muszę wspomnieć o kilku, nieumniejszających wartości pracy uwagach.

1. Pierwsza dotyczy nieprawidłowego formułowania mówiącego, że dziecko jest po porodzie np. „los dziecka po porodzie (str 34)”, „ewentualnego przeżycia dziecka po porodzie (str 20) czy „kontakt z noworodkiem po porodzie (str 36)”. Noworodek się rodzi, a więc wszystkie w/w stwierdzenia powinny opisane jako „po urodzeniu”, a po porodzie jest matka dziecka.
2. Po drugie opisując obecny stan rozwoju opieki perinatalnej w Europie nie wspomniała Doktorantka 2 krajów, w których opieka ta rozwija się od kilku lat (a więc dużo później niż w Polsce): Anglia i Francja. W tej ostatniej opublikowano nawet w 2016 roku obszerną, liczącą ponad 700 stron monografię, pod redakcją dr Pierre Betremieux zatytułowaną „La demarche palliative en médecine périnatale”.
3. Szkoda, że piśmiennictwo nie jest numerowane, bo trudno jest szybko ocenić jego liczbę oraz odnaleźć cytowania w tekście.
4. W kilku miejscach Autorka rozpoczyna zdanie od cyfry np. „6 osób odpowiedziało, że nic nie należy zmieniać” (str 85) albo „97% ankietowanych po postawieniu diagnozy prenatalnej dostało propozycje skorzystania ze wsparcia psychologa (str 98). Najlepiej nie zaczynać zdania od cyfry, a jeżeli jest to konieczne to powinna być pisana słownie.

Stwierdzam, że rozprawa „Jakość opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu według modelu hospicjum perinatalnego” odpowiada kryteriom stawianym pracom na stopień doktora nauk medycznych w oparciu o ustawę z dnia 14 marca 2003 roku o stopniach naukowych i tytule naukowym oraz o stopniach i tytule w zakresie sztuki, proszę więc Wysoką Radę Dyscypliny Nauki o Zdrowiu przy Uniwersytecie Medycznym im. Piastów Śląskich we Wrocławiu o dopuszczenie Pani mgr Joanny Krzeszowiak do dalszych etapów przewodu doktorskiego.

dr hab. n med. Magdalena Rutkowska, prof. IMiD