



Łódź, 06.11.2023 r.

## Ocena

rozprawy na stopień doktora nauk medycznych  
mgr Joanny Krzeszowiak pod tytułem

### „ Jakość opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu, według modelu hospicjum perinatalnego ”

Wczesne wykrywanie nieprawidłowości u płodu umożliwiające jak najszybsze objęcie ciężarnej wzmożoną opieką prenatalną jest jednym z największych wyzwań współczesnej perinatologii. W ciągu ostatnich kilkunastu lat dokonał się ogromny postęp w perinatologii. Powstało wiele metod diagnostycznych umożliwiających dokładne, wczesne i zarazem bezpieczne wykrywanie wielu problemów patologii ciąży, wad rozwojowych i chorób płodu. Rozwój ten umożliwia również przeprowadzanie terapii wewnątrzmacicznej.

Wdrożenie idei wewnątrzmacicznej terapii płodu stwarza pojęcie „**płodu jako pacjenta**” oraz wprowadza w życie nowy system opieki nad ciężarną i płodem. Możliwość korekcji wewnątrzmacicznej i zmniejszenia destrukcyjnych następstw danej wady rozwojowej czy choroby płodu pozwala nie tylko na poprawienie wewnątrzmacicznego stanu płodu, ale i wydłużenie czasu trwania ciąży, a zatem przyczynia się do rodzenia noworodków w lepszym stanie ogólnym. Każda z przyszłych matek chce pomóc swojemu nienarodzonemu dziecku, tak aby zmniejszyć destrukcyjne i nieodwracalne skutki danej nieprawidłowości rozwojowej czy choroby płodu. Powodzenie leczenia wewnątrzmacicznego zależy od możliwości wczesnego rozpoznania, stopnia zaawansowania wady rozwojowej oraz współistnienia innych nieprawidłowości.

Zdecydowanie uważa się, że do leczenia powinny być kwalifikowane płody, u których potencjalne korzyści przewyższają ryzyko terapii. Na tym etapie kluczową

rolę odgrywa ocena ultrasonograficzna, w której należy położyć szczególny nacisk zarówno na ocenę nasilenia wady jak i wykluczenie współistnienia innych nieprawidłowości oraz wady letalnej. Terapia płodu wymaga w każdym przypadku dokładnego wyjaśnienia rodzicom związanych z nią problemów. Dokładne wyjaśnienie możliwości pozwala rodzicom na wspólny z lekarzem wybór najkorzystniejszej metody postępowania. I podobnie należy również postępować przy stwierdzeniu wady letalnej. Bardzo istotnym wg International Fetal Medicine and Surgery Society / IFMSS / jest podkreślenie, że znany jest naturalny przebieg choroby, można przewidywać jej przebieg i niedostępna jest skuteczna terapia pourodzeniowa lub terapia pourodzeniowa była by zbyt późna.

Ośrodek prowadzący terapię wewnątrzmaciczną powinien zapewnić rodzicom wszechstronną pomoc medyczną i psychologiczną, zależną od podejmowanych przez nich decyzji, wynikających zarówno z wyników kompleksowej diagnostyki jak i sposobu prowadzonego leczenia wewnątrzmacicznego. Rozważania etyczne na temat terapii płodu zostały opublikowane przez Amerykańską Akademię Pediatrii już dość dawno, bo w 1999 roku / *Committee on bioethics, American academy of pediatrics: Fetal therapy – ethical considerations. Pediatrics (1999) 1061 – 1063* /.

Mgr położnictwa Joanna Krzeszowiak porusza w swojej pracy bardzo trudny problem postępowania w przypadku rozpoznania wady letalnej płodu - zarówno dla płodu jak i dla matki, rodziców, rodziny jak i dla zespołu diagnostyczno - terapeutycznego. Postawienie jednoznacznej diagnozy – „wada letalna” – sprawia wszystkim diagnostom i zaangażowanym specjalistom w wielu przypadkach dużo trudności.

Doktorantka podkreśla w swojej pracy, że oddzielny, duży problem w perinatologii stanowi jakość opieki nad rodzicami w przypadkach stwierdzonej wady letalnej płodu. Zwraca uwagę, że opieka nad kobietą ciężarną, szczególnie taką, która spodziewa się ciężko chorego dziecka, nie jest łatwa dla opiekującego się nią zespołu. Uważa również, że kluczowe jest postawienie precyzyjnej diagnozy w okresie prenatalnym przez interdyscyplinarny zespół złożony z położnika, perinatologa, neonatologa, genetyka, kardiologa, chirurga dziecięcego, radiologa i oczywiście psychologa. Przy konkretnej patologii czy zespole wad rozwojowych mogą uczestniczyć również kardiochirurdzy, neurochirurdzy, urologi, nefrologi i specjaliści intensywnej terapii noworodkowej.

Niestety - pomimo wielu starań w opiece perinatalnej, rozpoznanie wady letalnej płodu pozostaje nadal trudne i postępowanie w wielu ośrodkach naszego kraju sprawia dużo problemów. Autorka pracy uważa, że kobiety, które po prenatalnej diagnozie o letalnym rokowaniu dla dziecka kontynuują ciążę, doświadczając krótkiego macierzyństwa, stały się uosobieniem cierpienia i dramatu oraz znakiem przemian, jakie dokonały się w różnych populacjach i krajach na przestrzeni ostatnich kilkudziesięciu lat. Problem ten stanowi ciągłe wyzwanie dla współczesnej medycyny perinatalnej.



Dotychczasowe poglądy i schematy postępowania są ciągle niezadowolające i nie doczekały się do chwili obecnej kompleksowego, jednoznacznego opracowania. Z tych wszystkich względów, powyższą pracę uważam za bardzo ciekawą i oczekiwane doniesienie naukowe. Już sam temat dysertacji zapowiada wgląd w tematykę o cechach nie tylko naukowo - poznawczych, ale i mogącej znaleźć zastosowanie funkcjonalne. Recenzowana praca pt. „*Jakość opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu, według modelu hospicjum perinatalnego*” - stanowi niezwykle ciekawą analizę o dużej wartości zarówno teoretycznej, jak i praktycznej. Uważam zatem, że Autorka z pomocą Promotora prof. Roberta Śmigiel dokonała bardzo trafnego wyboru problemu badawczego.

*Mogłoby się wydawać, że nie jest łatwym zadaniem, poddać sumiennym badaniom ocenę jakości opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu. Jednak, raz jeszcze, okazało się, że wykonywanie badania przez specjalistę w danej dziedzinie klinicznej, podnosi znacznie wartość dokonanych spostrzeżeń - z korzyścią zarówno dla badającego jak i dokładności wyniku.*

Przedstawiona mi do oceny rozprawa została zredagowana w sposób tradycyjny. Obejmuje 151 stron tekstu, została podzielona na dziesięć rozdziałów. Całość pracy doktorskiej ma typowy układ. Zawarty spis tabel i rycin pozwala czytającemu w sposób intuicyjny odnaleźć się w treści pracy, nie zaburzając całości koncepcji. Streszczenie w języku polskim, jak i angielskim wprowadza w temat - pozwala na rzetelne zapoznanie się z kolejnymi rozdziałami pracy oraz ich zawartością merytoryczną. Wykaz piśmiennictwa zawiera 97 pozycji, z czego 63 z ostatnich 10 lat - co świadczy o dokonaniu aktualnej analizy poruszanych problemów.

Ta obszerna i bardzo ciekawa praca przygotowana jest prawidłowo zarówno pod względem prezentacji uzyskanych wyników jak i konstrukcji zadania naukowego. We wstępie swojej pracy autorka umiejętnie i kompetentnie wprowadza czytelnika w problematykę przedmiotu badań i uzasadnia motywację ich podjęcia. Jasno i wyczerpująco przedstawia czytelnikowi zarówno podstawowe dane na temat etiologii i epidemiologii wad rozwojowych, diagnostyki i postępowania medycznego w okresie prenatalnym, definicji wady letalnej, uporczywej terapii oraz roli hospicjum perinatalnego i kwalifikacji do opieki paliatywnej.

Szeroko ujęte są dane pochodzące z załączonego piśmiennictwa podkreślające dużą rolę modelu opieki tzw. hospicjum prenatalnego. Autorka zwraca uwagę, że model ten zakłada wsparcie od momentu podejrzenia wystąpienia nieprawidłowości u płodu, przez planowanie i realizację postępowania diagnostycznego, okołoporodowego z uwzględnieniem potrzeb zarówno matki jak i letalnie chorego płodu oraz wsparcie w ewentualnej kontynuacji postępowania terapeutycznego po wypisie ze szpitala, aż do śmierci dziecka.

Autorka podkreśla słusznie, że perinatalna opieka paliatywna (POP) jest stosunkowo młodą dziedziną medycyny, zapewniającą wielowymiarową opiekę

rodzicom, którzy stają w obliczu narodzin dziecka z chorobą ograniczającą jego życie w okresie prenatalnym lub po urodzeniu. Dodatkowo zaznacza, iż wyjątkowość POP polega na tym, że opieką otacza się równocześnie dwie osoby – matkę i dziecko, będące jeszcze w fazie prenatalnej lub po narodzinach.

*Trzeba podkreślić, biorąc pod uwagę klasyczną definicję położnictwa, że nie jest to specjalnie wyjątkowe, ponieważ od zawsze, zdrowie i życie dwóch osób - matki i dziecka jest głównym priorytetem naszej specjalności - położnictwa.*

W końcowej części wstępu mgr położnictwa Joanna Krzeszowiak przedstawiła w oparciu o dobrze dobrane i współczesne piśmiennictwo schematy postępowania po diagnozie prenatalnej choroby płodu o letalnym rokowaniu, problem wcześniejszego zakończenia czy kontynuowania ciąży, zasady kwalifikacji do perinatalnej opieki paliatywnej podkreślając sytuację w Polsce i na świecie. Potwierdziła również bardzo istotną rolę ojca którego potrzeby są stawiane na równi z potrzebami matki - wsparcie psychologiczne oraz aktywny udział w procesie diagnostyczno - decyzyjnym.

Autorka ostatecznie wyraźnie podkreśla, że problem związany z opieką nad rodzicami, którzy mimo prenatalnej diagnozy o jednoznacznie złym rokowaniu chcą urodzić swoje dziecko, jest bardzo trudny, złożony i wielowymiarowy, wymaga szerokiego spojrzenia w perspektywie medycznej, społecznej, psychologicznej i kulturowej. Tym samym przekonała że posiada dobrą znajomość polskiego i obcojęzycznego piśmiennictwa obejmującego sferę interesujących ją zagadnień.

Cel pracy został trafnie zakreślony, jasno i precyzyjnie sformułowany.

Celem głównym pracy była ocena jakości sprawowanej opieki nad rodzicami ze zdiagnozowaną wadą letalną u płodu, którzy zdecydowali się kontynuować ciążę - według przyjętego na terenie Wrocławia i okolic modelu hospicjum perinatalnego.

Cel ten był realizowany poprzez:

- analizę danych dotyczących stawianych prenatalnie rozpoznań, na podstawie których następuje kwalifikacja do wdrożenia perinatalnej opieki paliatywnej,
- analizę dalszych losów ciąży pacjentek nie decydujących się na terminację,
- analizę oceny jakości sprawowanej opieki nad pacjentkami oczekującymi narodzin dziecka z wadą o charakterze letalnym, w zależności od przyjętego sposobu sprawowanej opieki w danym Ośrodku.

Poza tym Autorka postanowiła dokonać:

- analizy 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.



Odpowiedź na postawione problemy przeprowadzona została na drodze prawidłowo zestawionego materiału badawczego. Badana grupa została zebrana według doboru celowego. Badanie zostało przeprowadzone w formie kwestionariusza ankiety, stworzonego na potrzeby tego badania. Zostało przeprowadzone od maja 2021 do grudnia 2022 roku, wśród pacjentek objętych opieką programu hospicjum perinatalnego we Wrocławiu w latach 2013 - 2022. Model opieki jaki przyjęto do oceny został wypracowany przez wrocławskich specjalistów na zasadzie współpracy.

Badaniami i opieką objęto 78 rodzin - ostatecznie do udziału w badaniu kwestionariuszowym zakwalifikowano 36 rodzin. Autorka określiła w sposób precyzyjny kryteria włączenia i wyłączenia z badań. Jasno wyznaczone kryteria mogą świadczyć o zaangażowaniu Autorki w selekcję, jak najbardziej jednorodnej grupy objętej opracowaniem. Z badania wykluczono rodziców, u których zdiagnozowano nieprawidłowości płodu, natomiast nie były one jednoznaczne, bądź nie spełniały warunku jednoznacznie złego rokowania według opinii specjalistów.

W celu przeprowadzenia badań zastosowano metodę sondażu diagnostycznego z wykorzystaniem techniki ankiety przy użyciu standaryzowanych kwestionariuszy tj.:

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

Przygotowanie materiału klinicznego i bardzo staranne opracowanie uzyskanych wyników, świadczy o bardzo dobrym przygotowaniu merytorycznym do tej pracy. Nie mam żadnych zastrzeżeń do metodyki prowadzonych badań. Wręcz przeciwnie, podziwiam tak rzadką dokładność, okazane doświadczenie i zaangażowanie w ich wykonywaniu.

Wyniki badań stanowią odzwierciedlenie pracy Autora. Zostały przedstawione w formie opisowej, tabelarycznej i w starannie przygotowanych ilustracjach graficznych. Prezentacja ich z użyciem licznych wykresów, tabel i histogramów nie tylko podnosi wartość estetyczną pracy, ale i poprawia czytelnikowi zrozumienie omawianych problemów. Autorka w ciekawy sposób dokonała analizy jakości opieki okołoporodowej, gdzie rodzice wskazują jako najistotniejszy aspekt opieki i przygotowania do porodu dziecka z wadą śmiertelną kontakt z genetykiem, ginekologiem, położną i neonatologiem, a więc zespołem bezpośrednio sprawującym nad nimi opiekę. Dopiero w dalszej kolejności za merytorycznie istotne uznają wsparcie psychologiczne czy planowanie dalszej opieki nad dzieckiem w domu.

Prezentacja wyników pracy nie budzi istotnych zastrzeżeń a szerokie ich omówienie świadczy o dużej znajomości przedmiotu i dużym praktycznym doświadczeniu doktorantki w przedstawianym problemie.

Najważniejszy i zarazem najciekawszy rozdział stanowi omówienie wyników oraz dyskusja, w której to Autorka wykazuje się dużą znajomością tematu. Forma ich omówienia i dyskusji z podziałem na trzy rodzaje ocenianych analiz jest bardzo koherentna. Możliwość odniesienia własnych wyników badań do dostępnych w literaturze tematu została wykorzystana przez Doktorantkę w sposób adekwatny. Zarówno liczba, jak i wartość merytoryczna przytaczanych w dyskusji pozycji piśmiennictwa świadczyć może o Jej naukowej dojrzałości i szerokim zainteresowaniu podjętą tematyką. Należy zauważyć, że prowadzona polemika jest wyważona i wysokiej jakości. Brak przypisów nieco utrudnia odniesienie wniosków Autora do piśmiennictwa. Również pewnym niedociągnięciem w mojej opinii, mogącym dyskretnie umniejszać wartości pracy jest brak uwzględnienia grupy ciężarnych, u których wykonywano w omawianej i analizowanej patologii próbę terapii wewnątrzmacicznej płodu.

Wnioski w liczbie 6 zostały wyprowadzone ostrożnie, logicznie wynikają z założeń i wyników przeprowadzonych badań. Szczególną wartość, moim zdaniem, posiada wniosek czwarty, mówiący o tym, że *„Jeśli pacjentka jest prawidłowo prowadzona w ciąży a stan płodu odpowiednio monitorowany, to żywo urodzony noworodek ma zapewniony komfort funkcjonowania oraz jest chroniony przed działaniami mającymi znamiona uporczywej terapii”*. Drobne edycyjne uchybienia, które stwierdziłem z obowiązku recenzenta - nie zmieniają zupełnie wysokiej wartości tej starannie przygotowanej pracy.

Rozprawa stanowi samodzielny i twórczy dorobek mgr położnictwa Joanny Krzeszowiak, która wykazała rozległą wiedzę teoretyczną i praktyczną w dziedzinie położnictwa i perinatologii a także „niepokój naukowy”, który zaowocował przygotowaniem niniejszej rozprawy.

Rozprawa mgr położnictwa Joanny Krzeszowiak odpowiada merytorycznym i formalnym wymogom stawianym na stopień doktora nauk medycznych, oraz spełnia warunki określone w art. 13 ust. 1, Ustawy z dnia 14 marca 2003 r. o stopniach naukowych i tytule naukowym oraz o stopniach i tytule w zakresie sztuki (Dz.U. 2003, Nr 65, poz. 595, z późn. zm.) w związku z art.179 ust1 ustawy z dnia 3 lipca 2018r. Przepisy wprowadzające ustawę - Prawo o szkolnictwie wyższym i nauce (Dz.U. z 2018r. poz1669 z późn. zm.).

W związku z powyższym mam zaszczyt przedstawić Wysokiej Radzie Dyscypliny Nauki o Zdrowiu Uniwersytetu Medycznego im. Piastów Śląskich we Wrocławiu wniosek o dopuszczenie mgr położnictwa Joannę Krzeszowiak do dalszych etapów przewodu doktorskiego.

Łódź, dnia 06.11. 2023 r.

Prof. Krzysztof Szaflik

Prof. dr hab. n. med.  
KRZYSZTOF SZAFLIK  
specjalista ginekologii i położnictwa  
specjalista perinatologii  
8 19 200