Prof. zw. dr hab. Edward Hojan
Instytut Akustyki
Uniwersytet im. A. Mickiewicza w Poznaniu

Poznań 15.07.2019r.

Recenzja
Rozprawy doktorskiej
Mgr Anny Ratuszniak
p.t. Ocena zastosowania aktywnych implantów na przewodnictwo kostne w kompensacji niedosłuchu przewodzeniowego i mieszanego

wykonanej w Klinice Oto-Ryno-Laryngochirurgii Instytutu Fizjologii i Patologii Słuchu pod kierunkiem dr hab. n. med. mgr zarz. Piotra H. Skarżyńskiego; promotor pomocniczy dr n.med. Danuta Raj-Koziak

Podstawa opracowania recenzji:

Uchwała Rady II Wydziału Lekarskiego Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego w Warszawie z dnia 12.06.2019.
Recenzja uwzględnia wymogi określone w art.13 ust.1 Ustawy o stopniach i tytule naukowym oraz o stopniach i tytule w zakresie sztuki w związku z art.179 ust.1 Ustawy z dnia 3 lipca 2018. Przepisy wprowadzające ustawę - Prawo szkolnictwie wyższym i nauce (Dz.U. z 2018r poz. 1669).

Przedstawiona do oceny rozprawa doktorska to autoreferat oraz cykl pięciu publikacji, w których trzech Anna Ratuszniak jest pierwszym autorem, a w pozostałych drugim:

1. Anna Ratuszniak, Maciej Mrówka, Piotr H. Skarżyński, Henryk Skarżyński
   Urządzenia wszczepialne na przewodnictwo kostne - zasada działania oraz wskazania
   Nowa Audiofonologia, 2017,6(3), DOI: 10.17431/1002721, ISSN 2084-946X
   MNiSW : 3
   Wkład własny Doktorantki: 70%

2. Anna Ratuszniak, Piotr H. Skarżyński, Kamila Osińska, Henryk Skarżyński
Ocena korzyści słuchowych po zastosowaniu aktywnego implantu na przewodnictwo kostne Bonebridge w trudnych warunkach chirurgicznych
Nowa Audiofonologia, 2018,7(3), DOI: 10.17431/1003109, ISSN 2084-946X
MNiSW : 3
Wkład własny Doktorantki: 80%

3. Anna Ratuszniak, Piotr H. Skarżyński, Elżbieta Gos, Henryk Skarżyński
The Bonebidge implant in older children and adolescents with mixed or conductive hearing loss : Audiological outcomes
International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology 2019, 118, 97-102
IF : 1.035
MNiSW : 25
Wkład własny Doktorantki: 80%

4. Piotr H. Skarżyński, Anna Ratuszniak, Bartłomiej Król, Magdalena Kozieł, Kamila Osińska, Katarzyna Cewka, Anna Sztabnicka, Henryk Skarżyński
The Bonebidge in aduls with mixed and conductive hearing loss: audiological and Quality of Live outcomes
Audiology&Neurotology, DOI: 10.1159/000499363, opublikowany online: 25.09.2019
IF : 2.078
MNiSW : 30
Wkład własny Doktorantki:: 55%

5. Henryk Skarżyński, Anna Ratuszniak, Kamila Osińska, Piotr H. Skarżyński
Anterior course of the sigmoid sinus and use of a lift with the Bonebidge implamnt: case report
J. Hear Sci. 2018, 8(4), 56-61, DOI: 10.17430/1003251
MNiSW : 10
Wkład własny Doktorantki: 60%

Łączna punktacja tych publikacji to 71 punktów według list MNiSW, a wartość współczynnika IF według list JCR wynosi 3,383.

Tak wysoki sumaryczny poziom punktacji wskazuje na to, że podjęty temat reprezentuje nie tylko wysoki poziom naukowy, ale i wnosi istotny wkład w aspekt praktyczny protezowania słuchu drogą przewodnictwa kostnego.
Bardzo wysoki procentowy udział Doktorantki w realizacji kolejnych prac wymaga szczególnego podkreślenia.

Przedłożona do recenzji praca doktorska pt. Ocena zastosowania aktywnych implantów na przewodnictwo kostne w kompensacji niedosłuchu przewodzeniowego i mieszanego, składa się, jak wyżej wspomniano, z dwóch podstawowych części.
Pierwszą z nich o objętości 31 stron, stanowi autoreferat obejmujący: wprowadzenie, omówienie zjawiska przewodnictwa kostnego, zjawiska niedosłuchu przewodzeniowego i mieszanego oraz systemu protez słuchowych, prezentację materiału badawczego jak i procedury chirurgicznej, oceny korzyści i bezpieczeństwa stosowania protez słuchowych.
W końcowym fragmencie tej części zaprezentowano wyniki zaimplantowania systemu Bonebridge u 34 pacjentów, przedstawiając ich progi słyszenia, średnie wartości wzmocnienia funkcjonalnego, stopień dyskryminacji mowy, przed i po zabiegu.
W oparciu o kwestionariusze APHAB oceniono korzyści z implantowania w kontekście zmian w codziennym funkcjonowaniu pacjenta.
Należy podkreślić, że w analizowanym okresie obserwacji u pacjentów poddanych procedurze wszczepienia systemu Bonebridge nie odnotowano poważnych zdarzeń niepożądanych.
Druga część pracy doktorskiej składa się z 5 recenzowanych wcześniej przez redakcje czasopism i niezależnych recenzentów, co zwalnia mnie z ich powtórzenia.

1. Wprowadzenie

Jednym z wielu niepożądanych skutków rozwoju cywilizacji jest wzrost poziomu zakłóceń akustycznych, z którymi spotykamy się w każdej sferze naszego życia codziennego.
Zakłócenia te wiążemy z różnymi ich źródłami, których struktura czy też technologia powstawania określa ich parametry, wskazując jednocześnie ewentualne możliwości ich prognozowania, ograniczania wielkości bezwzględnej lub w ogólności zamierzonego kształtowania.
Są one również niestety przyczyną wielu schorzeń, w tym słuchu.

Słuch jest zmysłem pozwalającym człowiekowi na odbiór wrażeń dźwiękowych, a tym samym na komunikowanie się z otoczeniem. Podstawowym środkiem służącym do nawiązywania i podtrzymywania kontaktów jest mowa.
Pojęcie uszkodzenia słuchu jest używane, jako nadrzędne w stosunku do wszystkich rodzajów i stopni ubytków słuchu, które nie dają się usunąć za pomocą środków medycznych.
Celem stosowania każdej protezy słuchu (aparatu słuchowego na przewodnictwo powietrzne lub kostne, implantu ślimakowego, implantu pniowego, implantów kostnych typu BAHA , Bonebridge, czy też np. implantu ucha środkowego), jest takie przetwarzanie sygnałów akustycznych docierających do mózgu, aby były one dostrzegane, dyskryminowane i identyfikowane, a w konsekwencji rozróżniane, jako dźwięk mowy, muzyki itd.
W wyborze protezy słuchowej powinno uwzględniać się przede wszystkim wyniki badań pacjenta: audiologicznych (m.in. stopień uzyskanego w audiometrii słownej rozumienia mowy), psychofizycznych, otolaryngologicznych, radiologicznych, oceniających kształt przewodu słuchowego zewnętrznego jak i predyspozycji manualnych (praworęczność/leworęczność), wykonywanego zawodu, a nawet uwzględniających aspekt kosmetyczny.
W zdecydowanej większości różnego rodzaju uszkodzeń słuchu wykorzystuje się protezy wzmacniającymi sygnał akustyczny drogą powietrzną, a tylko w określonych przypadkach drogą kostną.
Przeciwwskazania do protezowania na drodze powietrznej to:

- Wrodzone wady rozwojowe w obrębie ucha zewnętrznego i środkowego (mikrozja, atrezja i inne),
- Nabyte wady rozwojowe, w tym przewlekłe zapalenie ucha środkowego uniemożliwiające wprowadzenie protezy (wkładki) do przewodu słuchowego zewnętrznego, otoskleroza, tympanoskleroza i inne,
- Niewielki lub średni ubytek słuchu typu przewodzeniowego, w którym nie uzyskuje się poprawy w leczeniu operacyjnym lub u pacjenta, który nie chce poddać się zabiegowi operacyjnemu (ubytek na drodze powietrznej nie powinien przekraczać 50 dBHL, a na drodze kostnej 20 dBHL),

Implanty słuchowe na przestrzeni ostatnich 20 lat są przedmiotem bardzo dynamicznie rozwijających się kierunków badań związanych z kompensowaniem różnego rodzaju uszkodzeń słuchu, które w większości przypadków nie mogą (lub w tylko ograniczonej mierze) być kompensowane przez aparaty słuchowe.

Stanowią one niejednokrotnie jedyną możliwą formę pomocy dla osoby niedosłyszącej, która może, choć w części, przywrócić jej możliwość komunikowania się z otoczeniem. Jakkolwiek implant nie przywraca słuchu w sensie słuchu normalnego (nieuszkodzonego), to proces rehabilitacji osób z implantem prowadzi w znaczącej liczbie przypadków do zdecydowanej poprawy słyszenia dźwięku.

IMPLANTY KOSTNE (implant Bonebridge) to elektromechaniczny przetwornik drgający umieszczony podskórnie (implant aktywny), którego procesor dźwięku, dzięki sile przyciągania magnetycznego, utrzymuje się na skórze bezpośrednio nad implantem.

Trudno wręcz wymienić wszystkie aplikacje, które mogłyby być przedmiotem ewentualnych rozwiązań technicznych.

Równie interesująco przedstawia się sfera poznawcza tego problemu, a może bardziej precyzyjnie, sfera wrażliwości realizowanych idei kształtowania percypowanego dźwięku, która sama w sobie nie jest przecież ideą nową, ale do tej pory w praktyce realizowaną w bardzo ograniczonym zakresie.

Powstaje pytanie czy stosowane rozwiązania eliminują w stopniu istotnym wybrane uszkodzenia słuchu.

Recenzowana praca mgr Anny Ratuszniak wpisuje się w pełni w ten niezwykle ciekawy poznawczo i aplikacyjnie problem, na bazie oceny zastosowania aktywnego implantu na przewodnictwo kostne tzw. Bonebridge w praktyce klinicznej.

Przechodząc do recenzji pracy doktorskiej przedstawię ją, odnosząc się do kolejnych punktów autoreferatu:

2. Ocena merytoryczna autoreferatu w zakresie części monograficznej

Praca doktorska mgr Anny Ratuszniak zawiera 6 rozdziałów, streszczenie w j. polskim i j. angielskim, spis literatury, wykaz skrótów oraz fotokopie publikacji wchodzących w skład pracy doktorskiej.

We wprowadzeniu Doktorantka omówiła zjawisko przewodzenia dźwięku na drodze kostnej, dokonując bardzo syntetycznego przeglądu literaturowego, poczynając od prac Bekesego z roku 1932, a kończąc na pracach z roku 2019.

Może warto było wyjaśnić rolę przewodnictwa kostnego przy fizjologicznej percepcji dźwięku, a nie tylko w przypadkach patologii.

Przypadki patologii zostały powiązane z tzw. niedosłuchem przewodzeniowym i mieszanym.

Zostały podane główne przyczyny tych niedosłuchów jak i możliwości ich kompensacji. Wskazano, że nie zawsze jest możliwe wykorzystanie aparatu słuchowego.
Uwaga o ograniczeniu ich stosowania powiązana z dużymi wartościami wzmocnienia, "czemu często towarzyszą problemy natury akustycznej", wydaje się dyskusyjna. Współczesne aparaty słuchowe na przewodnictwo powietrzne mają tak zaawansowane układy antysprzężeniowe, że nawet przy bardzo dużych wzmocnieniach ww. problemy natury akustycznej nie występują.
Bardzo interesujący jest kolejny punkt pracy omawiający bardzo syntetycznie różne protezy słuchowe wykorzystujące kostne przewodnictwo dźwięków. Omówiono urządzenia konwencjonalne (aparaty słuchowe kostne-okularowe, opaski kostne, na pałąku) jak i najnowsze (dostępne od roku 2017) ADHEAR, składające się z przyklejanego w okolicy zausznej adaptera oraz podłączonego do niego zewnętrznego procesora dźwięku, zaopatrzonego w przetwornik drgający.
Przytoczono wyniki prac Branemarka, który jako pierwszy opisał zjawisko osteointegracji - klinicznie bezobjawowe, sztywne i trwałe połączenie materiału alloplastycznego z tkanką kostną. Zjawisko to pozwoliło na rozpoczęcie epoki aparatów zakotwiczonych w kości - BAHA (Bone Anchored Hearing), które zostały szczegółowo opisane w pierwszym artykule przedstawionego wyżej cyklu publikacji.
Osobny punkt w pracy poświęcono omówieniu aktywnego implantu na przewodnictwo kostne tzw. Bonebridge, który był następnie podstawą oceny przez Doktorantkę korzyści słuchowych oraz potwierdzenia bezpieczeństwa jego stosowania u osób z niedosłuchem przewodzeniowym i mieszanym.
Podano kryterium audiologiczne jego stosowania jak i szeroko rozumiane przeciwwskazania. Wskazano na konieczność uwzględnienia warunków anatomicznych. Typowo implant lokalizowany jest na wyrostku sutkowym przedzatokowo - w kącie zatokowo-oponowym; gdy nie jest to możliwe następuje zmiana położenia przetwornika drgającego (pozycjonowanie zazatokowe) lub wykorzystuje się podkładki dystansujące tzw. BCI-lifts (Bone Conduction Implant lifts).
Wyjaśnienia wymaga kolejność dat związanych z wprowadzeniem do praktyki klinicznej implantu na przewodnictwo kostne tzw. Bonebridge, w Europie, Polsce i w USA.
W kolejności Doktorantka sformułowała cel pracy wiążąc go głównie z oceną korzyści słuchowych oraz potwierdzeniem bezpieczeństwa zastosowania implantu na przewodnictwo kostne typu Bonebridge u osób z niedosłuchem przewodzenieowym i mieszanym.

Ta metoda kompensacji ma charakter nowatorski i unikatowy. Wykorzystanie zebranych w trakcie oceny danych stanowi punkt wyjścia do rzetelnej oceny możliwości stosowania sytemu Bonebridge zarówno u dzieci jak i osób dorosłych.

3. Ocena merytoryczna autoreferatu w zakresie materiału, metody oraz wyników wraz z dyskusją, wnioskami i streszczeniem

Grupa badana składała się z 34 osób ze zdiagnozowanym niedosłuchem przewodzeniowym i mieszanym, zaimplementowanych system Bonebridge w Światowym Centrum Słuchu Instytutu Fizjologii i Patologii Słuchu w latach 2012-2016.
Szczegółowe dane demograficzne i etiologię niedosłuchu grupy przedstawiono w pracach 2,3,4,5.
Zabieg chirurgiczny przeprowadzał każdorazowo zespół specjalistów w znieczuleniu ogólnym procedurą standardową, pozycjonując implant przedzatokowo, wykorzystując w razie potrzeby podkładki dystansujące.
Ocena korzyści słuchowych została przeprowadzona na bazie porównania progów słyszenia, średnich wartości wzmocnienia funkcjonalnego, stopienia dyskryminacji mowy, przed i po zabiegu (artykuły 2,3,4,5)
W oparciu o kwestionariusze APHAB oceniono korzyści z implantowania w kontekście zmian w codziennym funkcjonowaniu pacjenta (artykuły 3,4).
Użyto prawidłowych metod statystycznych przy opracowaniu wyników.
Podkreślić należy istotną poprawę detekcji dźwięku w warunkach włączonego implantu, wyrażoną poprzez średnie wartości wzmocnienia funkcjonalnego rzędu 28-31 dB, co potwierdza doniesienia literaturowe (24-37 dB).
Podobnie korzystne wyniki otrzymano przy ocenie zmian stopnia dyskryminacji mowy w ciszy po okresie 6 miesięcy (rzędu 35 %) dla osób dorosłych i rzędu 50% dla dzieci.
Generalnie zmalały, zarówno dla osób dorosłych jak i dzieci, oceny wskazujące na trudności percepcji akustycznej na bazie kwestionariusza APHAB, co koresponduje bardzo dobrze z wynikami w ocenie wzmocnienia funkcjonalnego i zmian stopnia dyskryminacji mowy w ciszy i w szumie.
Przeprowadzone w ramach oceny bezpieczeństwa zastosowanych implantów Bonebridge wraz z procedurą chirurgiczną badania zmian w przewodnictwie kostnym pozwalają stwierdzić, że odpowiednie różnice wartości progów przed i po zabiegu nie są istotne statystycznie. Bardzo istotne jest również to, że u pacjentów poddanych procedurze

wszczepienia implantu Bonebridge nie stwierdzono poważnych zdarzeń niepożądanych.
W ramach dyskusji, sformułowania wniosków jak i przedstawionego streszczenia Doktorantka w sposób bardzo syntetyczny i przekonywujący zaprezentowała korzyści, jakie odnosi pacjent w przypadku wykorzystania implantu Bonebridge, przy ograniczonym ryzyku powikłań związanych z penetracją skóry, które mogą wystąpić w przypadku stosowania innych systemów.
Przytoczona literatura (31 pozycji) wyczerpująco prezentuje większość istotnych dla prezentowanego zagadnienia prac.

Przechodząc do oceny końcowej pracy doktorskiej mgr Anny Ratuszniak chcę podkreślić, że praca charakteryzuje się przede wszystkim trafnością wyboru tematu. Jej wyniki w sposób bardzo jednoznaczny wskazują na korzyści stosowania implantów Bonebridge.
Trudno wręcz przecenić jej aspekt praktyczny z ukierunkowaniem na istotny wkład do stworzenia podwalin dla programu leczenia zaburzeń słuchu za pomocą aktywnych implantów na przewodnictwo kostne.
To niewątpliwe bardzo duże osiągnięcie Doktorantki, jako że bardzo rzadko wyniki pracy doktorskiej znajdują natychmiastową aplikację.
Niezależnie od przedstawionych kilku uwag szczegółowych w mojej recenzji stwierdzam, że:

- Problem naukowy podjęty w pracy, a dotyczący wieloaspektowego leczenia określonego typu niedosłuchu przy pomocy implantów na przewodnictwo kostne, jest bardzo ważnym fragmentem prowadzonych obecnie poszukiwań optymalizujących te rozwiązania.
- Doktorantka wykazała się rozległą wiedzą w uprawianej dyscyplinie naukowej oraz umiejętnością samodzielnego prowadzenia badan naukowych.
- Praca prezentuje wysoki poziom merytoryczny, napisana została bardzo starannie, z uwzględnieniem wszystkich wymogów redakcyjnych stawianych pracom naukowym.

Stwierdzam, że recenzowana praca spełnia wszystkie wymagania stawiane odpowiednimi przepisami pracom doktorskim i wnioskuję o dopuszczenie Anny Ratuszniak do dalszych etapów przewodu doktorskiego.
Wnioskuję jednocześnie o wyróżnienie recenzowanej pracy doktorskiej.

Prof. zw. dr hab. Edward Hojan