

Gdańsk, 11.05.2021

Łucja Bieleninik  
Uniwersytet Gdański; Instytut Psychologii  
Zakład Psychologii Klinicznej i Zdrowia  
[lucja.bieleninik@ug.edu.pl](mailto:lucja.bieleninik@ug.edu.pl)

### Autoreferat

#### 1. Imię i nazwisko

Łucja Bieleninik

#### 2. Posiadane dyplomy, stopnie naukowe lub artystyczne – z podaniem podmiotu nadającego stopień, roku ich uzyskania oraz tytułu rozprawy doktorskiej.

- 25.05.2012                      Stopień doktora nauk społecznych w zakresie psychologii uzyskany z wyróżnieniem na podstawie przedstawionej rozprawy doktorskiej pt. *Dzieci urodzone przedwcześnie w percepcji matek - biomedyczne moderatory spostrzegania* uzyskany uchwałą Rady Instytutu Psychologii Wydziału Nauk Społecznych Uniwersytetu Gdańskiego (Promotor: prof. dr hab. Mariola Bidzan; Recenzenci: prof. dr hab. Marta Bogdanowicz, dr hab. Dorota Kornas-Biela, prof. KUL, prof. dr hab. n. med. Krzysztof Preis)
- 20.06.2010                      Studia podyplomowe w zakresie psychologii klinicznej z wynikiem bardzo dobrym na Gdańskim Uniwersytecie Medycznym (Kolegium Kształcenia Podyplomowego).
- 29.10.2008                      Stopień licencjacki uzyskany z wynikiem bardzo dobrym w zakresie filologii klasycznej na Uniwersytecie Gdańskim (Wydział Filologiczny, Instytut Filologii Klasycznej).
- 14.05.2008                      Stopień magistra w zakresie psychologii klinicznej uzyskany z wynikiem bardzo dobrym w zakresie psychologii na podstawie przedstawionej pracy pt. *Uwarunkowania więzi emocjonalnej z dzieckiem w okresie prenatalnym w ciąży prawidłowej i przedterminowej* otrzymany w Instytucie Psychologii Wydziału Nauk Społecznych Uniwersytetu Gdańskiego

### 3. Informacja o dotychczasowym zatrudnieniu w jednostkach naukowych lub artystycznych.

- 1.02.2018-aktualnie Adiunkt (100%), Zakład Psychologii Klinicznej i Zdrowia, Instytut Psychologii, Wydział Nauk Społecznych, Uniwersytet Gdański, Gdańsk
- 1.04.2018-aktualnie *Senior researcher* (20%), NORCE Norwegian Research Centre AS, Bergen, Norwegia
- 11.2013-11.2014 Profesor wizytujący (20%), Instytut Psychologii, Wydział Nauk Społecznych Uniwersytetu Gdańskiego, Gdańsk
- 11.2012-12.2017 *Postdoctoral researcher* (100%), Uni Research Health, Bergen, Norwegia

### 4. Omówienie osiągnięć, o których mowa w art. 219 Ustawy 1 pkt. 2 ustawy z dnia 20 lipca 2018 r. Prawo o szkolnictwie wyższym i nauce

#### A) Tytuł osiągnięcia: **Efektywność muzykoterapii jako metody wspomagającej interakcje społeczne dzieci ze spektrum autyzmu**

(1 cykl powiązanych tematycznie artykułów naukowych opublikowanych w czasopiśmie naukowych lub w recenzowanych materiałach z konferencji międzynarodowych)

#### B) Lista publikacji

- 1) **Bieleninik, Ł.**, & Gold, C. (2021). Estimating components and costs of standard care for children with autism spectrum disorder in Europe from a large international sample. *Brain Sciences*, 11(3), 1–19. <http://doi.org/10.3390/brainsci11030340>
- 2) **Bieleninik, Ł.**, Geretsegger, M., Mössler, K., Assmus, J., Thompson, G., Gattino, G., ... Gold, C. (2017). Effects of Improvisational Music Therapy vs Enhanced Standard Care on Symptom Severity Among Children With Autism Spectrum Disorder. *JAMA - Journal of the American Medical Association*, 318(6), 525–535. <http://doi.org/10.1001/jama.2017.9478>
- 3) Crawford, M.J., Gold, C., Odell-Miller, H., Thana, L., Faber, S., Assmus, J., **Bieleninik Ł.**, Geretsegger, M., Grant, C., Maratos, A., Sandford, S., Claringbold, A., McConachie, H., Maskey, M., Mössler, K.A., Ramchandani, P., Hassiotis, A., on behalf of the TIME-A study team (2017). International multicentre randomised controlled trial of improvisational music therapy for children with autism spectrum disorder: TIME-A study. *Health Technology Assessment*, 21(59), 1–40. <http://doi.org/10.3310/hta21590>
- 4) **Bieleninik, Ł.**, Posserud, M.-B., Geretsegger, M., Thompson, G., Elephant, C., & Gold, C. (2017). Tracing the temporal stability of autism spectrum diagnosis and severity as

measured by the Autism Diagnostic Observation Schedule: A systematic review and meta-analysis. *PLoS ONE*, 12(9), 1–23. <http://doi.org/10.1371/journal.pone.0183160>

- 5) Geretsegger, M., Holck, U., **Bieleninik, Ł.**, & Gold, C. (2016). Feasibility of a trial on improvisational music therapy for children with autism spectrum disorder. *Journal of Music Therapy*, 53(2), 93–120. <http://doi.org/10.1093/jmt/thv038>

### C) Omówienie osiągniętych wyników

#### **Efektywność muzykoterapii jako metody wspomagającej interakcje społeczne dzieci ze spektrum autyzmu**

Moje zainteresowanie autyzmem rozpoczęło się w trakcie pracy jako terapeuta w Poradni dla Osób z Autyzmem NZOZ w Gdańsku, którą rozpocząłam po ukończeniu studiów magisterskich na Uniwersytecie Gdańskim. To także wtedy zaintrygowała mnie tematyka badań klinicznych pozwalających ocenić wpływ i efektywność interwencji psychologicznych na funkcjonowanie osób z różnorodnymi problemami. Natomiast muzykoterapia wzbudziła moje zainteresowanie w 2012 roku, gdy po obronie rozprawy doktorskiej na Uniwersytecie Gdańskim dostałam się na 5-letni staż na stanowisku *post-doctoral researcher* w Uni Research Health (Norwegia) podczas, którego koordynowałam realizację projektu TIME-A (Trial of Improvisational Music Therapy's Effectiveness for Children With Autism). W trakcie mojego stażu uczestniczyłam w wielu szkoleniach mających na celu podnieść moje kwalifikacje jako badacza (m.in. Pragmatic Randomized Controlled Trials in Health Care; Karolinska Institutet, Szwecja; Project Management training, Nowegia; Systematic Reviews & Meta-Analyses of Health Research, London School of Hygiene & Tropical Medicine, UK) oraz klinicysty (m. in. szkolnie ADOS-2; Great Ormond Street Hospital for Children NHS Trust London). W projekcie miałam przyjemność nadzorować pracę interdyscyplinarnego zespołu złożonego z 30 muzykoterapeutów, 23 psychologów, 24 osób prowadzących poradnictwo dla rodzin, statystyka, 15 kierowników projektu w poszczególnych krajach, asystentów, osób wprowadzających dane, jak również współpracować z członkami Komitetu Naukowo-Doradczego (*Scientific Advisory Committee*) i niezależnego Komitetu Monitorującego Dane i Bezpieczeństwo (*Data and Safty Monitoring Committee*). Po powrocie do kraju rozpoczęłam pracę na macierzystej uczelni (Uniwersytet Gdański) jako adiunkt, gdzie prowadzę m.in. autorski obowiązkowy wykład „Wprowadzenie do badań klinicznych w psychologii” oraz ćwiczenia „Introduction to systematic reviews methodology”. Kontynuuję także pracę naukową jako kierownik projektu w Polsce oraz *core team member* aktualnie trwającego

(2018-2022) międzynarodowego badania pt. **Longitudinal study of music therapy's effectiveness for premature infants and their caregivers: International randomized trial (LongSTEP)**. Obszar moich zainteresowań obejmuje skuteczność psychologicznych i nefarmakologicznych metod interwencji w dziedzinie zdrowia psychicznego. Badawczo kieruje się nurtem praktyki opartej na dowodach naukowych będącej ważnym elementem procesu tworzenia wytycznych praktyki klinicznej. Moim osobistym celem jest kontynuowanie autorskich zajęć, ponieważ zależy mi, aby przyszli absolwenci prowadzili badania zgodnie z międzynarodowymi standardami, które stanowią podstawę wytycznych praktyki klinicznej na całym świecie, natomiast klinicyści opierali swoje oddziaływania terapeutyczne w oparciu do wiarygodne i rzetelne dane pochodzące z wielu randomizowanych prób klinicznych lub metaanaliz. Opierając się na współpracy z uznanymi instytucjami naukowymi i akademickimi zależy mi także na rozwijaniu sieci naukowo-badawczej w kraju i tym samym włączenie polskich placówek do badań klinicznych o zasięgu międzynarodowym.

### ***Wprowadzenie***

Zaburzenie ze spektrum autyzmu (*autism spectrum disorder, ASD*) odnosi się do szeregu neurorozwojowych zaburzeń trwających całe życie, charakteryzujących się obecnością wczesnych objawów w dwóch głównych domenach: zaburzenia wzajemnej komunikacji społecznej oraz obecności ograniczonych i powtarzających się zachowań (DSM-5; ICD-11). Chociaż w przeszłości klasyfikacje DSM i ICD wykazywały pewne różnice w zakresie symptomatologii, to aktualnie wersje wykazują większą ich spójność. Kryteria diagnostyczne DSM-5 podkreślają dodatkowo przetwarzanie sensoryczne jako kluczowy obszar trudności, wpływający na percepcję wzrokową, słuchową, dotykową i integrację multisensoryczną. Szacuje się, że ASD dotyka około 1% populacji z dużą zmiennością wskaźników występowania na świecie (Chiarotti i Venerosi, 2020) oraz z tendencją wzrostową (Fombonne, 2020). Osoby ze spektrum autyzmu znajdują się także w grupie ryzyka zaburzeń współwystępujących, jak np. zespołu nadpobudliwości psychoruchowej z deficytem uwagi, zaburzeń lękowych, zaburzeń snu i czuwania, zaburzeń kontroli impulsów i zachowania, depresyjnych, obsesyjno-kompulsywnych i innych (Lai i in., 2019). Organizacja *Autism-Europe* (Barthélémy i in., 2019) podkreśla, że aktualnie nadrzędnym celem jest zapewnienie osobom z ASD i ich rodzinom takiego wsparcia, które pozwoli im żyć jak najlepiej. Nie ma jednak lekarstwa na autyzm, nie ma także standardowego pakietu opieki, który byłby odpowiedni dla każdego dziecka z ASD. Osoby ze spektrum autyzmu wymagają odmiennego

wsparcia w każdym wieku, dlatego ważne jest, aby we właściwym czasie zapewnić właściwy rodzaj terapii, która uzyskała poparcie w badaniach naukowych (*empirically supported treatments*, EST). Wyniki badań wskazują, że interwencje behawioralne, rozwojowe, edukacyjne i medyczne należą do nielicznych, których skuteczność została udowodniona w badaniach klinicznych (Weitlauf i in., 2014; Wong i in., 2015). Wyniki licznych projektów badawczych na temat skuteczności terapii pochodzą jednak z badań niekontrolowanych, nierandomizowanych, obejmujących małą grupę badaną czy krótką obserwację. Światowa Organizacja Zdrowia (<https://www.who.int/news-room/fact-sheets/detail/autism-spectrum-disorders>, dostęp dnia 1 kwietnia 2021) zaleca oparte na dowodach naukowych interwencje psychospołeczne (w tym terapię behawioralną i programy szkolenia umiejętności rodziców), które mogą zminimalizować ograniczenia w umiejętnościach komunikacyjnych i społecznych umiejętnościach behawioralnych u dzieci z ASD, poprawiając tych samych *well-being* i jakość życia tych osób, a także i ich rodziców. Diagnoza ASD często wiąże się z niższą jakością życia osób nie tylko nim dotkniętych, ale także ich rodzin. Podczas gdy niektóre osoby z ASD są w stanie prowadzić produktywne i satysfakcjonujące życie, inne cierpią z powodu utraty produktywności ekonomicznej przez całe życie, mają kompleksowe potrzeby w zakresie opieki zdrowotnej i społecznej, czy edukacji specjalnej.

Na wstępie chciałabym wyjaśnić czym jest muzykoterapia (MT). MT jest podejściem integrującym różne ujęcia teoretyczne oraz modele oddziaływań praktycznych. Obok koncepcji zakorzenionych w perspektywie psychodynamicznej czy behawioralnej, najczęściej stosowanym sposobem pracy jest improwizacja, tj. rodzaj wykorzystania muzyki w jej najbardziej spontanicznej formie, co znajduje zastosowanie w pracy z osobami z ASD. Skąd wiemy, że osoby z ASD mogą być beneficjentami formy muzykoterapii, klasyfikowanej jako muzykoterapia improwizacyjna (IMT)? Już Kanner (1943) w pierwszym opisie autyzmu zauważył, że wiele dzieci z autyzmem preferuje muzykę. IMT dedykowana dzieciom z ASD skoncentrowana jest przede wszystkim na rozwoju umiejętności komunikacyjnych, językowych i społecznych poprzez tworzenie, słuchanie i reagowanie na muzykę. Improwizacja może być formą komunikacji niewerbalnej i przedwerbalnej, która umożliwia osobom niewerbalnym lub mającym problemy z komunikacją słowną (które często występują u dzieci z ASD), komunikowanie się bez użycia słów. W przypadku dzieci niemówiących, terapeuta zaprasza dziecko do słuchania, wokalizowania i aktywnego reagowania na muzykę (ruch, taniec), a stosowane improwizacje wokalne (kombinacje samogłoskowe i spółgłoskowe lub proste komunikaty słowne) mają na celu stymulowanie i kształtowanie ekspresji wokalne oraz poprawę prozodycznych cech mowy u dziecka. W sytuacji, gdy umiejętności dziecka

pozwalają, terapeuta angażuje pacjenta do wspólnego śpiewu i gry na instrumentach. Muzykoterapeuta stosuje muzyczną interakcję (pytanie i odpowiedź) przy użyciu instrumentu muzycznego i głosu, co przyczynia się do poprawy artykulacji, fleksji, oddychania i tempa mowy. IMT jest formą terapii skoncentrowanej na dziecku, w którym terapeuta współtworzy muzykę z pacjentem tworząc „muzyczny dialog” oparty na dźwiękach. Ten dialog w trakcie trwania terapii doprowadza do powstania relacji między nimi. W trakcie sesji terapeuta zestrza się ponadto ze stanem emocjonalnym pacjenta dając wyraz temu, jak postrzega jego emocje i odczucia. Tworząca się w ten sposób empatyczna improwizacja jest tożsama z podejściem „dopasowania” obecnym w programowaniu lingwistycznym. Dzieci z ASD mają potrzebę struktury, a muzyczne działania ją zapewniają, gdyż IMT jest zorganizowana, zsynchronizowana i regulowana. Muzyka ma swoją formę (harmonia, melodia), regulację (np. metrum, rytm), intensywność (dynamika) i odbywa się w obrębie dziecka (intra-subiektywna płaszczyzna) oraz między dzieckiem i terapeutą (płaszczyzna międzypodmiotowa) (Mössler i in., 2017). Improwizacja natomiast dotyczy aspektu, w którym muzykoterapeuta wykorzystuje ją jako podstawowe doświadczenie terapeutyczne (Bruscia, 2014). Należy podkreślić, że na efektywność terapii szczególnie wpływają muzyczne procesy dostrojenia emocjonalnego (*musical emotional attunement*) kształtujące się między pacjentem a terapeutą (Geretsegger i in., 2015). Trevarthen i Malloch (2000) oraz Stern i in. (1985) popierają ideę, że komunikacja międzyludzka może być postrzegana jako muzyczna. Osoby z ASD dzięki MT mogą osiągnąć poziom komunikacji, który wcześniej nie był dla nich możliwy. Trevarthen i Malloch (2000) wskazują, że *“Music therapy is an intimate way of communicating impulses of the self that creates benefits by transforming an active and intimate relationship with a therapist. [...] The communication is possible because music is an expression of the quality of feeling in human movement, and because there is a strong innate impulse to share feelings (s. 5)”*. W trakcie trwania terapii powstaje między terapeutą a pacjentem interakcyjna synchroniczność (*interactional synchronicity*) będąca mechanizmem, dzięki któremu dzieci uczą się rozumieć wewnętrzne stany emocjonalne innych osób (Feldman, 2007). Synchronizacja interakcji jest wrodzoną zdolnością opartą na mechanizmach fizjologicznych (układach oscylatorów i hormonach związanych z przywiązaniem), która może być osiągnięta w ramach muzykoterapii poprzez współtworzenie muzyki (Birnbbaum, 2014; Johns, 2018; Yoo i Kim, 2018). Istnieją ponadto dowody, które łączą dysfunkcyjny system neuronów lustrzanych z deficytami behawioralnymi w autyzmie (Wan i in., 2010), przy czym reprezentacje neuronów lustrzanych można stymulować podczas treningu, co wskazuje również na ich plastyczność (Catmur Walsh, Heyes, 2017). Ponieważ MT obejmuje zarówno naśladowanie, jak i synchronizację, to

może angażować te obszary mózgu, które pokrywają się z regionami przypuszczalnie zawierającymi neurony lustrzane, dlatego czynności muzyczne mogą być szczególnie przydatne w terapii pacjentów z ASD (Overy i Molnar-Szakacs, 2009; Wan i in., 2010).

Celem muzykoterapii oparta na dowodach naukowych (*evidence-based music therapy*, EBMT) jest promowanie skutecznych praktyk muzykoterapeutycznych i poprawa zdrowia publicznego dzięki stosowaniu empirycznie popartych zasad działalności praktycznej, relacji terapeutycznej i interwencji z uwzględnieniem pełnego zakresu dowodów naukowych. Zgodnie z nurtem EBMT, muzykoterapeuta, podejmując każdą decyzję, stara się zintegrować najlepsze dostępne dowody naukowe z własnym doświadczeniem, w połączeniu z wartościami, oczekiwaniami i życzeniami swojego pacjenta. Przegląd systematyczny i metaanaliza Cochrane (Geretsegger i in., 2014) pozwolił na zidentyfikowanie 10 małych randomizowanych badań klinicznych (RCTs) na temat MT dedykowanej dzieciom z ASD i wykazał, że ta forma terapii jest skuteczniejsza od placebo lub standardowego postępowania w aspekcie interakcji społecznych, niewerbalnych i werbalnych umiejętności komunikacyjnych, zachowania inicjującego i odwzajemniania społeczno-emocjonalnego oraz postępowania w zakresie adaptacji społecznej, radości i jakości relacji rodzic-dziecko. Z uwagi na metodologię włączonych do przeglądu badań oraz małą liczbę pacjentów, autorzy metaanalizy (Geretsegger i in., 2014) podkreślili, że istnieje potrzeba prowadzenia odpowiednio zaprojektowanych badań, które skoncentrują się na ocenie utrzymania efektywności muzykoterapii w czasie. Wyniki te były przesłanką dla stworzenia projektu TIME-A.

### ***Metodyka projektu „TIME-A”***

**TIME-A to pojedynczo zaślepione randomizowane badanie kliniczne z trzema grupami równoległymi o charakterze pragmatycznym, w którym oceniano efektywność IMT w celu poprawy interakcji społecznych u dzieci z ASD.** Jest to 4 letni projekt (2012-2016) finansowany przez Research Council of Norway (grant nr 213844, The Clinical Research oraz The Mental Health Programs; 15 MLN NOK; kierownik projektu; prof. Christian Gold) organizowany przez Uni Research Health. Projekt miał **charakter międzynarodowy** (prowadzony był w Australii, Austrii, Brazylii, Izraelu, Włoszech, Korei, Norwegii, Wielkiej Brytanii, USA) i **wieloośrodkowy** (10 placówek, w tym dwie w Wielkiej Brytanii). **Międzynarodowa współpraca pozwoliła na zrekrutowanie 702 dzieci, z których 364 dzieci zostało włączonych do badania na podstawie ustalonych *a priori* kryteriów kwalifikalności, co czyni ten projekt największym jak dotąd badaniem w tej dziedzinie.** Dzieci zostały włączone do badania na podstawie następujących kryteriów włączenia: (1) wiek

- 4;0 to 6;11 lat; (2) diagnoza ASD na podstawie protokołu obserwacji do diagnozowania zaburzeń ze spektrum autyzmu (ADOS) oraz wywiadu klinicznego do diagnozowania zaburzeń ze spektrum autyzmu (ADI-R), co stanowi złoty standard diagnozy klinicznej na świecie. Wśród kryteriów wyłączenia uwzględniliśmy: (1) poważne zaburzenia sensoryczne (takie jak ślepotą lub głuchota), ponieważ mogłyby mieć wpływ na przebieg i sposób prowadzenia terapii oraz (2) wcześniejsze doświadczenie muzykoterapeutyczne, które mogłyby pośrednio wpłynąć na wyniki jako czynniki zakłócające. Ustalone kryteria włączenia i wyłączenia oraz potwierdzenie diagnozy ASD przed randomizacją miało na celu uniknięcie błędu selekcji (*selection bias*), który spowodowany jest błędem w doborze osób do grupy klinicznej i kontrolnej powodujący różnicę w ich charakterystyce.

**Głównym celem projektu było ustalenie czy IMT jest lepsza od standardowej opieki dla poprawy interakcji społecznych u dzieci z ASD po zakończeniu terapii.** Celami pobocznymi było określenie:

- (1) czy IMT jest lepsza od standardowej opieki dla poprawy interakcji społecznych u dzieci z ASD w ocenie rodziców po zakończeniu terapii;
- (2) czy efektywność terapii zmienia się wraz ze zmianą intensywności IMT;
- (3) jak postępuje rozwój interakcji społecznych oceniany 7 mies. po zakończeniu terapii.

Dane były zbierane na kilku punktach czasowych: ocena wyjściowa (przed doбором losowym do grupy), 2 mies. po randomizacji (w trakcie terapii), 5 mies. po randomizacji (zakończenie terapii), 12 mies. po randomizacji (7 mies. po zakończeniu terapii). **Główną zmienną był wynik afektu społecznego (*social affect, SA*) na podstawie ADOS** oceniany po zakończeniu interwencji (5 mies.). Wyniki poboczne dotyczyły następujących zmiennych:

- (1) wynik afektu społecznego (ADOS) oceniany w trakcie trwania terapii (2 mies.) i 7 mies. po jej zakończeniu (12 mies.);
- (2) wynik ogólny Skali Reagowania Społecznego (*Social Responsivness Scale. SRS*) i jej 5 podskal (świadomość społeczna; poznanie społeczne; komunikacja społeczna; motywacja społeczna; autystyczne manieryzmy) w okresie 2, 5, 12 miesięcy;
- (3) ocena jakości życia rodziny i dziecka na podstawie 100 punktowej skali (0 = najgorszy do 100 = najlepsza możliwa jakość życia) w okresie 2, 5, 12 miesięcy;

Ocena dokonywana przy pomocy narzędzia ADOS odbywała się na wszystkich punktach czasowych z udziałem 23 psychologów, którzy nie byli informowani o losowym przydziale dzieci do grupy. Inne narzędzia (ADI-R, SRS, skala jakości życia) miały charakter samoopisowy i były wypełniane przez rodziców/opiekunów dzieci w okresie 2, 5, 12 miesięcy. Uczestnicy badania zostali losowo przydzieleni do jednej z następujących trzech grup:



(1) **MT o wysokiej intensywności (HI-MT)**: sesje improwizacyjnej muzykoterapii (IMT) trzy razy w tygodniu przez 5 mies. (max 60 sesji) oraz 3 sesje poradnictwa dla rodziców jako „standardowa opieka” (pierwsza sesja na początku, druga po 2 mies. i trzecia po 5 mies.).

(2) **MT o niskiej intensywności (LO-MT)**: sesje IMT raz w tygodniu przez 5 mies. (max 20 sesji) oraz trzy sesje poradnictwa dla rodziców (na początku badania, 2 i 5 mies.).

(3) **opieka standardowa (SC)**: standardowa opieka dedykowana dzieciom z ASD według polityki kraju oraz 3 sesje poradnictwa dla rodziców (na początku badania, 2 i 5 mies.).

Terapia była przeprowadzana indywidualnie (około 30 min) przez 30 przeszkolonych muzykoterapeutów (21 kobiet; średnia wieku, 34,7 lat; średnia doświadczenia jako terapeuta 7,3 lat) 3 razy lub 1 raz/tydzień przez okres 5 m-cy. Interwencja prowadzona była w nurcie improwizacyjnej muzykoterapii, zgodnie z wytycznymi stworzonymi na potrzeby projektu (Geretsegger i in., 2015), co miało na celu uniknięcie błędu wynikającego z różnic w postępowaniu w porównywanych grupach (*performance bias*). Wiarygodność interwencji terapeutycznej (*treatment fidelity*) oceniana została przez 2 niezależnych oceniających przy użyciu nagrań 606 losowo wybranych 3-minutowych segmentów od 63 uczestników. Poradnictwo rodzinne (zarówno w grupie klinicznej i kontrolnej) prowadzone było przez 24 profesjonalistów mających doświadczenie z dziećmi z ASD (20 kobiet; psychologowie kliniczni, pracownicy socjalni lub muzykoterapeuci).

Wskaźnik przydziału do grupy w badaniu wynosił 1:1:2, tak aby liczba dzieci uczęszczających na terapię (LO-MT; HI-MT) była zbliżona do liczby uczestników w grupie kontrolnej (SC). W tym celu użyto randomizacji blokowej z losowymi sekwencjami o wielkości odpowiednio 4 lub 8 bloków oraz stratyfikacji pod względem ośrodka (oddzielna lista dla każdego miejsca, aby uniknąć ewentualnego odgadnięcia niektórych przydziałów). Jako jedyna osoba znająca kolejność przydziału odpowiadałam za randomizację uczestników w każdym kraju/ośrodku i tym samym zapewniłam dotrzymanie utajnienia kodu randomizacji (*allocation concealment*), którego warunku niespełnienie łamie fundamentalne znaczenie randomizacji i ma negatywny wpływ na jakość badania klinicznego. Randomizacja miała również na celu utrzymanie wiarygodności wewnętrznej badania, która dotyczy stopnia, w jakim otrzymane wyniki i sformułowane wnioski odpowiadają rzeczywistemu związkowi między analizowanym postępowaniem a jego wpływem na oceniane efekty terapeutyczne. TIME-A prowadzony był zgodnie z najwyższymi standardami badań klinicznych pod względem ich planowania, prowadzenia, dokumentowania i raportowania wyników, dlatego **reprezentuje poziom II w hierarchii dowodów naukowych**. Protokół badania odpowiadający wytycznym SPIRIT po uzyskaniu zgody komisji etyki wraz z planem analizy

statystycznej (uwzględniający analizę główną, poboczną oraz analizę podgrup) został opublikowany w bazie Clinical.Trial.Gov (ISRCTN78923965). Niezależny Komitet Monitorujący Dane i Bezpieczeństwo monitorował bezpieczeństwo i badał pośrednie wyniki skuteczności (*interim analyses*) w trakcie trwania projektu. Na potrzeby projektu przeszkoliłam osoby odpowiedzialne za zbieranie danych w każdym kraju w zakresie Standardowych Procedur Operacyjnych (*Standard Operating Procedures*), które współtworzyłam, jak również psychologów dokonujących oceny przy użyciu ADOS na temat zaślepienia (*blinding*). Dodatkowo dbałam o jakość danych we wszystkich ośrodkach badawczych i o przebieg projektu zgodnie z procedurami i zasadami Dobrej Praktyki Klinicznej.

### ***Padanie pilotażowe TIME-A***

Wyniki badania opublikowane w artykule:

Geretsegger, M., Holck, U., **Bieleninik, Ł.**, & Gold, C. (2016). Feasibility of a trial on improvisational music therapy for children with autism spectrum disorder. *Journal of Music Therapy*, 53(2), 93–120. <http://doi.org/10.1093/jmt/thv038>

W ostatnich latach ponownie pojawiło się zainteresowanie dzieleniem się doświadczeniami pochodzącymi z poszczególnych etapów badań klinicznych (w tym badań pilotażowych), zwłaszcza w interwencjach nefarmakologicznych, także w zakresie MT. Wskazuje na to między innymi Sheri Robb (2013), która w jednym z listów redakcyjnych czasopisma *Journal of Music Therapy* podkreśliła, że „*The pilot study is a powerful first step in designing and testing novel and innovative interventions*” (s. 4). Tym samym celem pierwszej pracy wchodzącej w skład mojego osiągnięcia naukowego stanowiącego podstawę ubiegania się o stopień doktora habilitowanego była: (1) ocena wykonalności projektu TIME-A w obszarach rekrutacji uczestników, możliwości wdrożenia zaplanowanych warunków badania, planowanych ocen i utrzymania badanych przez cały okres projektu; (2) ocena bezpieczeństwa; (3) udokumentowanie dodatkowych form terapii, na które uczęszczają dzieci w ramach standardowej opieki; oraz (4) zweryfikowanie spójności trendów w pomiarach wyników ADOS i SRS w ciągu trwania projektu.

W badaniu pilotażowym, przeprowadzonym z zastosowaniem protokołu badania TIME-A (Geretsegger, Holck, Gold, 2012) uczestniczyli obywatele Austrii. W badaniu tym zrekrutowano łącznie 25 dzieci, z których 10 zostało wykluczonych jako niespełniających kryteriów włączenia do grupy. Ogólny wskaźnik włączenia do badania wyniósł zaledwie 60%, a okres rekrutacji wydłużono z 18 do 23 mies., aby osiągnąć założoną populację. Spośród 15

dzieci włączonych do badania, 4 losowo przydzielono do grupy HI-MT, 3 do LO-MT, a 8 do grupy kontrolnej (SC). Średnia liczba sesji dla grupy HI-MT wyniosła 30,8 z możliwych 60 sesji, co daje wskaźnik ukończenia sesji wynoszący 51% (liczba sesji dla poszczególnych uczestników wynosiła odpowiednio: 26, 28, 33 i 36). Średnia liczba sesji dla grupy LO-MT wynosiła 18,6 z możliwych 20 sesji, co daje wskaźnik ukończenia sesji wynoszący 93% (liczba sesji dla poszczególnych uczestników wynosiła: 17, 19 i 20). Wszystkie rodziny (100%) uczestniczyły we wszystkich 3 sesjach poradnictwa rodzinnego (oferowanego w trzech grupach: LO-MT, HI-MT, SC). Wyniki badania wskazały mniejszą liczbę sesji MT niż zakładano oraz utrudnienia w wyznaczeniu sesji z rodzinami, co dotyczyło głównie przerw świątecznych, ale także chorób dziecka lub rodzica odpowiedzialnego za odprowadzenie dziecka na terapię, czy też ogólnych trudności logistycznych w regularnym uczęszczaniu na terapię. Okazało się, że założona liczba 3 sesji w tygodniu dla grupy HI-MT jest trudna do osiągnięcia, co miało znaczący wpływ na niski wskaźnik retencji uczestników w tej grupie.

W odniesieniu do przeprowadzonych ocen psychologicznych, zaobserwowałam, że wykonanie testu ADOS było możliwe na każdym punkcie czasowym. Uważam ten wynik za szczególnie istotny, gdyż wartości ADOS zaplanowane zostały w analizie głównej w badaniu głównym TIME-A. Dla SRS pełne dane zebrano dla oceny wyjściowej i na 12 mies. (braki dla jednej rodziny; 2 i 5 mies.). Badanie pilotażowe wykazało także, że procedura zamaskowania była możliwa w 100% (we wszystkich 15 przypadkach psychologów dokonując oceny przy użyciu ADOS nie byli świadomi na temat przydziału uczestników do grup w żadnym punkcie czasowym), co jest szczególnie istotne dla uniknięcia błędu pomiaru (*detection bias*) wynikającego z różnic w sposobie pomiaru i oceny punktów końcowych. Wskaźnik retencji dla badań psychologicznych wynosił 100%, co niweluje błąd utraty (*attrition bias*) związany z wycofywaniem się lub wykluczeniem uczestników z badania powodujący powstanie istotnych różnic w zakresie liczby i charakterystyki populacji, która ukończyła całe badanie. Uważam, że jest to szczególnie istotne w przypadku badań longitudinalnych (jak TIME-A). Zadałam również o to, aby w trakcie trwania 12-mies. badania pilotażowego także dzieci z grupy kontrolnej ukończyły całe badanie; rodzice tych dzieci musieli pojawić się na badaniu psychologicznym aż 4 razy w trakcie projektu, pomimo iż dzieci z tej grupy nie otrzymały terapii w ramach projektu, ani nie mogły uczestniczyć w MT poza projektem. W efekcie, wprowadzone przeze mnie poradnictwo zaproponowane rodzicom dzieci z grupy kontrolnej okazało się trafnym zabiegiem pomagającym utrzymać uczestników badania w ciągu całego projektu i zniwelować wskaźnik *drop-outs*.

W odpowiedzi na drugie pytanie badawcze o zakres bezpieczeństwa, otrzymałam wyniki zgodne z oczekiwaniami wskazujące, że żadna z uczestniczących rodzin nie zgłosiła niepożądanych zdarzeń w ciągu trwania projektu. Natomiast w odniesieniu do trzeciego pytania badawczego dotyczącego dodatkowych form terapii, zaobserwowałam, że 9 z 15 uczestników otrzymało dodatkową terapię poza projektem TIME-A w ramach standardowej opieki. Dodatkowe formy terapii dotyczy terapii zajęciowej, terapii mowy i języka, terapii poprzez zabawę, interwencji behawioralnych, treningu umiejętności społecznych, usług specjalistycznych, neurofeedback i terapii dźwiękiem Tomatisa. Dwoje dzieci otrzymywało suplementy diety (cynk i różne witaminy) oraz stosowało dietę (bezglutenową, bez węglowodanów, bez mleka). Żaden z uczestników nie uczestniczył na MT poza projektem.

Przeprowadzone badanie pozwoliło również na udzielenie odpowiedzi na pytanie o spójność trendów w pomiarach wyników ADOS i SRS w ciągu trwania projektu. Trendy wyników ADOS i SRS obserwowane w czasie (zob. tabela 1) wskazują, że dla 60% dzieci kierunek zmian był inny na podstawie tych dwóch narzędzi. Odsetek ten był wyższy niż oczekiwano, jednakże moim zdaniem nie jest rzadkością, że zmienne oceniane są odmiennie przez różnych oceniających (psycholog vs. rodzic) z uwzględnieniem różnych perspektyw (obiektywna vs. subiektywna), przy czym ocena psychologiczna nie jest obarczona błędem stronniczości, stąd powinna być uznana za rzetelną miarę. Uzyskany przeze mnie brak spójności w pomiarach ADOS i SRS otrzymanych na różnych punktach czasowych ilustruje także złożoność trajektorii symptomów poszczególnych dzieci z ASD, które mogą prezentować akceleracje i deterioracje rozwoju na różnych etapach życia w zakresie różnych domen/sfer.

Tabela 1. Trendy w ocenach wyników u poszczególnych uczestników badania pilotażowego (N=15)

	Part. #	ADOS-SA, baseline	ADOS-SA, 5 months	Direction of change for ADOS-SA*	SRS total, baseline	SRS total, 5 months	Direction of change for SRS*	Direction of change consistent for ADOS and SRS
High-intensity condition	1	18	15	↘	100	113	↗	No
	2	17	14	↘	148	127	↘	Yes
	3	21	24	↗	166	177	↗	Yes
	4	19	20	↗	147	140	↘	No
Low-intensity condition	5	13	11	↘	89	90	↗	No
	6	15	15	-	128	158	↗	No
	7	19	18	↘	156	194	↗	No
	8	18	13	↘	120	129	↗	No
Standard care condition	9	8	6	↘	169	188	↗	No
	10	23	21	↘	140	missing	N/A	N/A
	11	18	16	↘	118	131	↗	No
	12	25	18	↘	187	179	↘	Yes
	13	18	19	↗	120	127	↗	Yes
	14	14	17	↗	183	192	↗	Yes
	15	8	9	↗	108	120	↗	Yes

\*Note. Direction of change for ADOS-SA: arrow downward = decrease in severity of impairment, indicating improvement in social affect abilities from baseline to 5 months; arrow upward = increase in severity of impairment, indicating deterioration in social affect abilities from baseline to 5 months. Direction of change for SRS: arrow downward = decrease in severity of impairment, indicating improvement in social responsiveness abilities from baseline to 5 months; arrow upward = increase in severity of impairment, indicating deterioration in social responsiveness abilities from baseline to 5 months.

Podsumowując, chociaż wyniki badania pilotażowego wskazały jednoznacznie, że protokół TIME-A został odpowiednio zaprojektowany, to uzyskane dane wskazały na pewne aspekty związane z wykonalnością projektu (jak np. niski wskaźnik rekrutacji, mała liczba sesji w grupie HI-MT, trudności logistyczne w wyznaczeniu sesji).

### ***Efektywność improwizacyjnej muzykoterapii w ramach badania TIME-A***

Wyniki badania opublikowane w artykule:

**Bieleninik, Ł.**, Geretsegger, M., Mössler, K., et al. (2017). Effects of Improvisational Music Therapy vs Enhanced Standard Care on Symptom Severity Among Children With Autism Spectrum Disorder. The TIME-A Randomized Clinical Trial. *JAMA The Journal of the American Medical Association*, 318(6), 525-435. doi:10.1001/jama.2017.9478

Ponieważ wyniki badania pilotażowego okazały się obiecujące, **to kolejnym etapem projektu była ocena efektywność IMT jako metody wspomagającej interakcje społeczne dzieci ze spektrum autyzmu na grupie międzynarodowej**. Wyniki te stanowią część drugiej pracy wchodzącej w skład mojego osiągnięcia naukowego stanowiącego podstawę ubiegania się o stopień doktora habilitowanego. Te międzynarodowe badanie przeprowadziłam na grupie 364 dzieci z ASD (wg. ICD-10: 301 dzieci miało autyzm dziecięcy, F84.0; 3 - autyzm atypowy, F84.1; 14 - zespół Aspergera, F84.5; 46 - całościowe zaburzenia rozwojowe nieokreślone, F84.9). Z docelowej populacji 36 pochodziło z Australii, 16 z Austrii, 25 z Brazylii, 25 z Izraela, 56 z Włoch, 27 z Korei, 8 z Norwegii, 118 z Wielkiej Brytanii i 53 z USA. Średnia wieku wynosiła 5,4 lat, przy czym większość populacji stanowili chłopcy (302) a 165 dzieci miało IQ <70. Rysunek 1 prezentuje udział uczestników w projekcie badawczym. Spośród 702 zrekrutowanych dzieci, ostatecznie 182 dzieci przydzielono do MT (90 - HI-MT; 92 - LO-MT), a 182 do SC, przy czym 86% ukończyło główny punkt końcowy (5 mies.), a 80% ukończyło ostatni punkt końcowy (12 mies.).

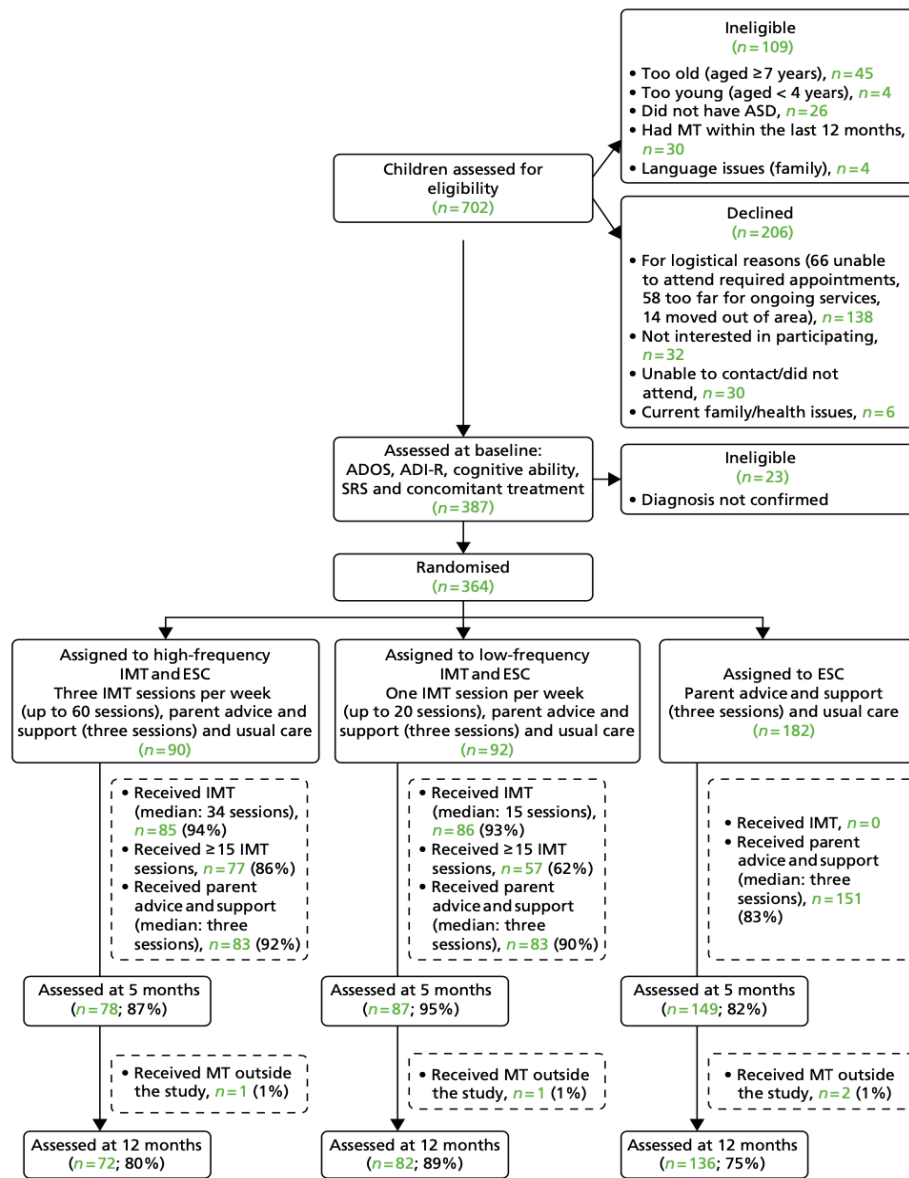


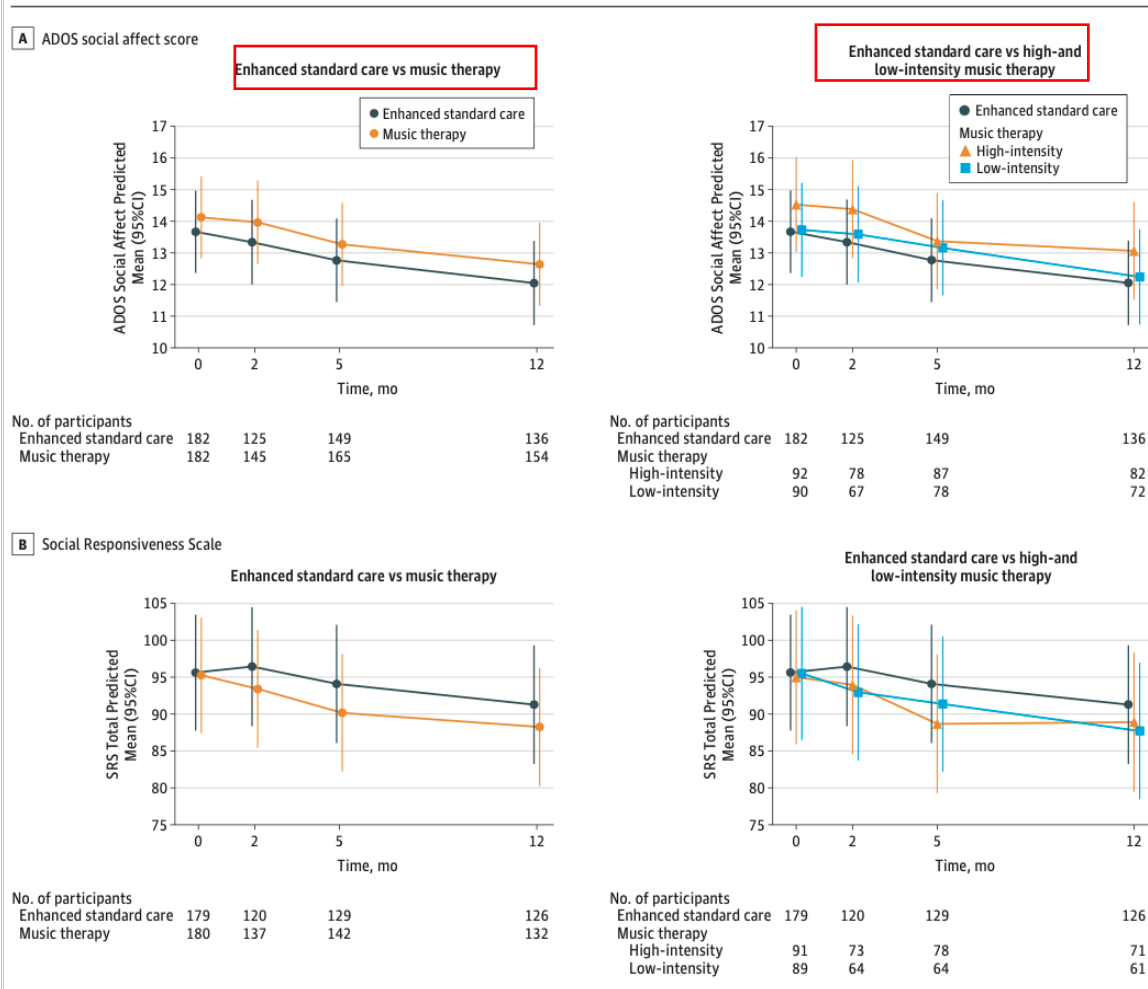
FIGURE 1 Study flow chart for 702 children assessed for the international trial. MT, music therapy.

Rysunek 1. Schemat badania TIME-A z uwzględnieniem 702 dzieci zrekrutowanych do projektu.

Założyłam, że interakcje społeczne dzieci ze spektrum autyzmu będą wzrastać wraz z czasem trwania IMT, której efektywność okaże się lepsza w porównaniu do warunków standardowej opieki. Podstawą tej hipotezy były także wyniki wcześniejszych badań innych autorów sugerujące, że wczesna MT może odegrać znaczącą rolę w zmniejszaniu wczesnych trudności społecznych (Geretsegger i in., 2014) poprzez zachęcanie do naśladowania, wspólnej uwagi i zabawy, promowanie komunikacji i wspieranie rozwoju umiejętności społecznych. Biorąc także pod uwagę udokumentowane dowody wczesnej intensywnej terapii behawioralnej (*early intensive behavioral intervention*) stosowanej w celu poprawy

symptomatologii u małych dzieci z ASD (Reichow, 2012; Reichow i in., 2018) zakładałam, że częstsza IMT może zintensyfikować poprawę ocenianych umiejętności. Dodatkowo ocena uczestników 7 mies. po zakończeniu terapii miała dostarczyć informacji, czy efekt terapii będzie względnie trwały (będzie utrzymywał się w czasie). Rysunek 2 ilustruje średnie wartości dla zmiennej **afekt społeczny ADOS** i **wyniku całkowitego skali SRS** dla wszystkich punktów czasowych z podziałem na dwie grupy (kliniczna vs. kontrolna: MT vs. SC) oraz z uwzględnieniem podziału na muzykoterapię o wysokiej lub niskiej intensywności (HI-MT vs. LO-MT vs. SC).

Figure 2. Effects of Interventions Over Time: Predicted Mean Values From Linear Mixed-Effects Models



Graphs illustrate the predicted values from linear mixed-effects models presented in eTables 5 and 6 in Supplement 2. Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) social affect score (range of possible scores, 0-27; higher scores indicate greater severity; minimal clinically important difference, 1) over 5 months was the primary outcome. For the Social Responsiveness Scale (SRS)

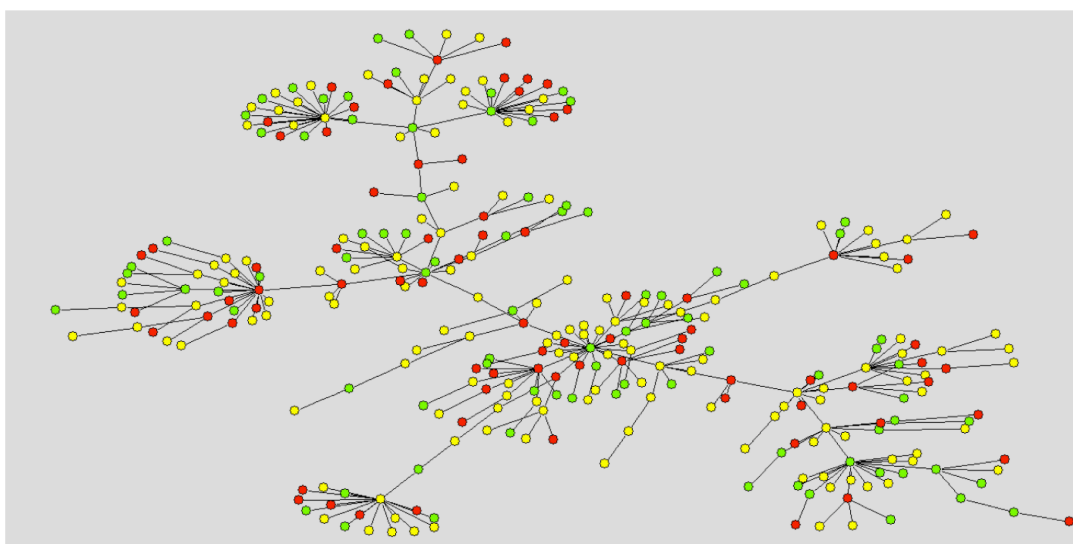
total, range of possible scores, 0 to 195; higher scores indicate greater severity. High-intensity music therapy comprised 3 music therapy sessions per week (up to 60 sessions); low-intensity music therapy comprised 1 music therapy session per week (up to 20 sessions).

Rysunek 2. Wyniki efektywności MT dla wszystkich punktów czasowych: ADOS i SRS.

W odpowiedzi na pytanie o efektywność IMT dla poprawy interakcji społecznych u dzieci z ASD po zakończeniu terapii, zaobserwowałam, że po 5 mies. terapii średni wynik zmiennej afekt społeczny zmniejszył się z 14,08 do 13,23 w grupie IMT i z 13,49 do 12,58 w

SC, jednakże średnia zmiana tego wyniku była podobna wśród osób zrandomizowanych do obu grup ( $p=0,88$ ). **Wbrew moim oczekiwaniom, uzyskane wyniki nie potwierdziły hipotezy o pozytywnym wpływie IMT na poprawę interakcji społecznych mierzonych przy pomocy ADOS.** Nie zaobserwowałam różnic istotnych statycznie pomiędzy grupą IMT a SC dla afektu społecznego ADOS ocenianej także w trakcie trwania terapii (2 mies.:  $p=0,61$ ) oraz 7 mies. po jej zakończeniu (12 mies.:  $p=0,69$ ), ani dla podskal ADOS (Język i komunikacja; Wzajemność w interakcjach społecznych; Zachowania stereotypowe i sztywne zainteresowania) na żadnym punkcie czasowym (2, 5, 12 mies.). **Wyniki te nie potwierdziły także hipotezy o długofalowym wpływie MT na umiejętności społeczne dzieci z ASD wskazując na brak wpływu terapii także 7 mies. po jej zakończeniu.** Planowanie procesu terapeutycznego u dzieci z autyzmem uwarunkowane jest wieloma czynnikami, m.in. stopniem nasilenia symptomów, występowaniem zaburzeń współwystępujących, potencjałem intelektualnym, motywacją samego uczestnika terapii, poziomem komunikacji (werbalnym i niewerbalnym), czy uczestniczeniem w dodatkowych formach terapii. Warto zatem zaznaczyć, że w opisywanym badaniu nie zaobserwowałam statystycznie istotnych różnic w zakresie obrazu klinicznego dzieci przed randomizacją (w zakresie średniej wyniku całkowitego ADOS, skali afektu społecznego ADOS, skali ograniczonych i powtarzanych zachowań ADOS, czy IQ), co wskazuje, że grupy były homogeniczne przy ocenie wyjściowej (zob. rysunek 3). Wydaje się jednak, że brak poprawy w zakresie interakcji społecznych pomiędzy grupami może jednak wynikać z mniejszej niż planowano liczby sesji, którą otrzymały dzieci (kwestię tę wyjaśniam bardziej szczegółowo w kolejnym akapicie). Ponadto, nie można wykluczyć, że pięciomiesięczny okres terapii nie jest wystarczająco długim okresem, żeby można było zaobserwować zmianę w tym zakresie (przynajmniej w skali afektu społecznego ADOS).





*Note.* This figure shows the clustering of records according to their multidimensional similarity. Yellow – enhanced standard care; red – high-intensity music therapy; green – low-intensity music therapy.  
*Explanation:* The map in this figure represents the natural clustering of participants enrolled in the study obtained with minimum spanning tree algorithm. Each participant is described by 24 baseline variables (demographic characteristics and concomitant treatments). The figure shows the projection of all patients in a multidimensional space related to these variables. Natural clustering emerges bottom-up. Each node represents a participant. Participants are linked directly when their multidimensional similarity is very high. The closeness between participants is inversely proportional to separation degrees of the representing nodes.  
*Interpretation:* In each cluster of participants the three groups are represented, suggesting that randomization created a multidimensional balance between the groups.

Rysunek 3. Wielowymiarowe skalowanie charakterystyk wyjściowych według grup terapeutycznych.

Przeprowadzone badanie pozwoliło również na udzielenie odpowiedzi na pytanie o zależność efektywności terapii od jej intensywności. **Wbrew moim założeniom, uzyskane przeze mnie i współpracowników wyniki nie potwierdziły tej hipotezy.** Nie stwierdziłam bowiem istotnych statystycznie różnic między MT o wysokiej ( $p=0.61$ ) lub niskiej ( $p=0.47$ ) intensywności a opieką standardową w aspekcie afektu społecznego ADOS po 5 mies. terapii. Brak różnic międzygrupowych (HI-MT vs. LO-MT vs. S.C.) ujawnił się także w aspekcie afektu społecznego ADOS dla pozostałych punktów czasowych (2 i 12 mies.). Moim zdaniem wynik ten jest uwarunkowany małą/ niewystarczającą liczbą sesji, które otrzymały dzieci (mediana 19; 35 dla HI-MT i 15 dla LI-MT), szczególnie dzieci przydzielone do grupy z intensywną MT (średnia liczba sesji u tych dzieci była prawie dwa razy mniejsza niż zakładano; 35/60). Trudności z wyznaczaniem daty spotkania z terapeutą były spowodowane głównie przerwami świątecznymi i wakacyjnymi, chorobami oraz logistycznymi trudnościami z przywiezieniem dzieci na terapię 3 razy w tygodniu.

**Analizy nie potwierdziły moich założeń także w przypadku odpowiedzi na pytanie o efektywność IMT dla poprawy interakcji społecznych u dzieci z ASD w ocenie rodziców po zakończeniu terapii.** Chociaż po 5 mies. terapii wartość ogólnego wyniku SRS faktycznie zmniejszyła się z 96,0 do 89,2 dla grupy MT i z 96,1 do 93,3 dla grupy SC (zob. rysunek 2); to wynik ten nie osiągnął jednak poziomu istotności statystycznej ( $p=0,13$ ). Innymi słowy, rodzice oceniali podobnie dzieci pod względem obecności i nasilenia zaburzeń społecznych

(*social impairment*) niezależnie czy dziecko było uczestnikiem MT w ramach projektu, czy nie. Nie zaobserwowałam także różnicy istotnej statystycznie pomiędzy grupami (MT vs. SC) dla wartości ogólnego wyniku SRS w trakcie trwania terapii (2 mies.:  $p=0,28$ ) oraz 7 mies. po jej zakończeniu (12 mies.:  $p=0,26$ ). Chociaż wyniki analizy głównej nie potwierdziły postawionych przeze mnie hipotez, to przeprowadzone dodatkowe analizy wykazały, że **dzieci z grupy muzykoterapii o niskiej intensywności (LO-MT vs. SC) wykazywały większą poprawą w podskali SRS świadomość społeczna (*social awerness*) ocenianą w trakcie terapii (2 mies.:  $p=0,06$ ), a dzieci z grupy muzykoterapii o wysokiej intensywności (HI-MT vs. S.C.) wykazywały większą poprawą w podskali SRS *manieryzmy (autistic mannerisms)* po zakończeniu terapii (5 mies.:  $p=0,01$ ). Wszystkie pozostałe analizy dotyczące SRS nie wykazały wpływu MT na poprawę w zakresie weryfikowanych zmiennych.**

Wśród wyników analizy *post hoc* średnie zmiany **jakości życia dzieci włączonych do badania po zakończeniu terapii były istotnie statystycznie w grupie HI-MT w porównaniu do grupy ze SC (5 mies.:  $p=0,03$ )**. Nie zaobserwowałam jednak statycznie istotnych różnic dla tej zmiennej w trakcie trwania terapii oraz 7 mies. po jej zakończeniu (12 mies.). Nie zaobserwowałam także różnic w aspekcie jakości życia rodzin, na żadnym punkcie czasowym oraz w żadnym porównaniu.

Chociaż wyniki projektu TIME-A wskazały, że IMT - w porównaniu z opieką standardową - nie pływa na poprawę interakcji społecznych dzieci z ASD (postawiona przeze mnie hipoteza nie potwierdziła się), uzyskane wyniki stanowią na tyle ważny głos w międzynarodowej dyskusji na temat efektywności MT, że opublikowano je w czasopiśmie głównego nurtu dla nauk o zdrowiu (JAMA, IF w 2017 = 47.661).

### **Analizy podgrup**

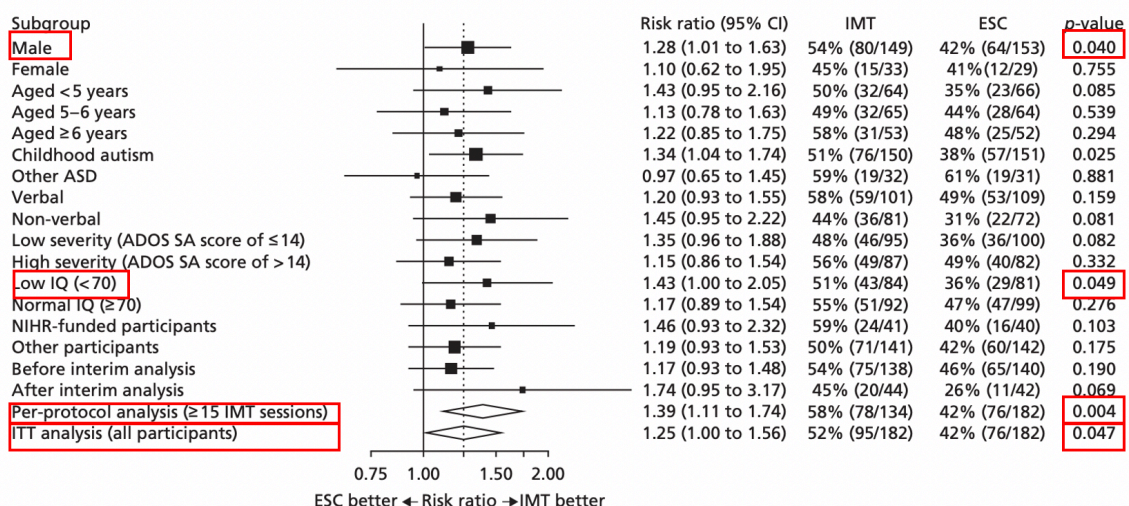
Wyniki badania opublikowane w artykule:

Crawford, M.J., Gold, C., Odell-Miller, H., Thana, L., Faber, S., Assmus, J., **Bieleninik Ł.**, ..., on behalf of the TIME-A study team (2017). International multi-centre randomised controlled trial of improvisational music therapy for children with autism spectrum disorders: TIME-A study. *Health Technology Assessment*, 21(59), 1–40. doi: 10.3310/hta21590

Celem trzeciej pracy wchodzącej w skład mojego osiągnięcia naukowego stanowiącego podstawę ubiegania się o stopień doktora habilitowanego była ocena efektywności IMT ocenianej dla poprawy afektu społecznego ADOS po zakończeniu terapii w podgrupach klinicznych. Przeprowadzone badania zmierzały przede wszystkim do ustalenia, dla kogo IMT jest bardziej skuteczną formą terapii niż standardowa opieka ukierunkowana na poprawę

interakcji społecznych u dzieci z ASD. Efektywność IMT analizowano w kontekście takich zmiennych, jak płeć, wiek (poniżej 5 lat; 5-6; powyżej 6 lat), typ diagnozy (autyzm; ASD), sposób komunikacji dziecka (werbalny; niewerbalny), wynik afektu społecznego ADOS (powyżej lub poniżej 14 punktów jako punkt odcięcia), liczbę otrzymanych sesji, poziom inteligencji (poniżej lub powyżej 70). Dodatkowo w kohorcie brytyjskiej sprawdziliśmy, czy IMT wiąże się ze zmniejszeniem stresu rodzicielskiego i poprawą samopoczucia rodziców bezpośrednio po zakończeniu terapii (5 mies. od badania wyjściowego) i 7 mies. później (12 mies. od badania wyjściowego).

W odpowiedzi na pierwsze pytanie o efektywność terapii w poszczególnych podgrupach (zob. rysunek 3), przeprowadzone analizy wykazały, że **IMT jest efektywnym sposobem oddziaływania i wpływa na poprawę interakcji społecznych mierzonych przy pomocy ADOS u chłopców, osób z diagnozą autyzmu, osób z inteligencją poniżej przeciętnej oraz w przypadku, kiedy dziecko otrzyma co najmniej 15 sesji muzykoterapeutycznych**. Wyniki te są szczególnie istotne z klinicznego punktu widzenia, gdyż jednoznacznie wskazują, kto jest potencjalnym beneficjentem muzykoterapii, a także jaka jest potrzebna minimalna liczba sesji będąca warunkiem oczekiwanej zmiany. Ponadto, analiza danych wykazała **istotnie większą poprawę interakcji społecznych ADOS po 5 mies. terapii** w grupie MT (95/182 [52%]) w porównaniu z grupą SC (76/182 [42%]) ( $p=0,047$ ). W praktyce klinicznej oznacza to, że dzieci z ASD uczęszczające na MT przez okres 5 mies. wykazują poprawę interakcji społecznych, która wyrażona jest w poprawie o co najmniej 1 punkt w podskali afektu społecznego ADOS.



Effects of IMT vs. ESC on proportion of improved cases on ADOS social affect scale at 5 months by clinical subgroup. SA, social affect.

Rysunek 4. Wpływ IMT w zakresie afektu społecznego ADOS po 5 mies. terapii dla podgrup klinicznych.

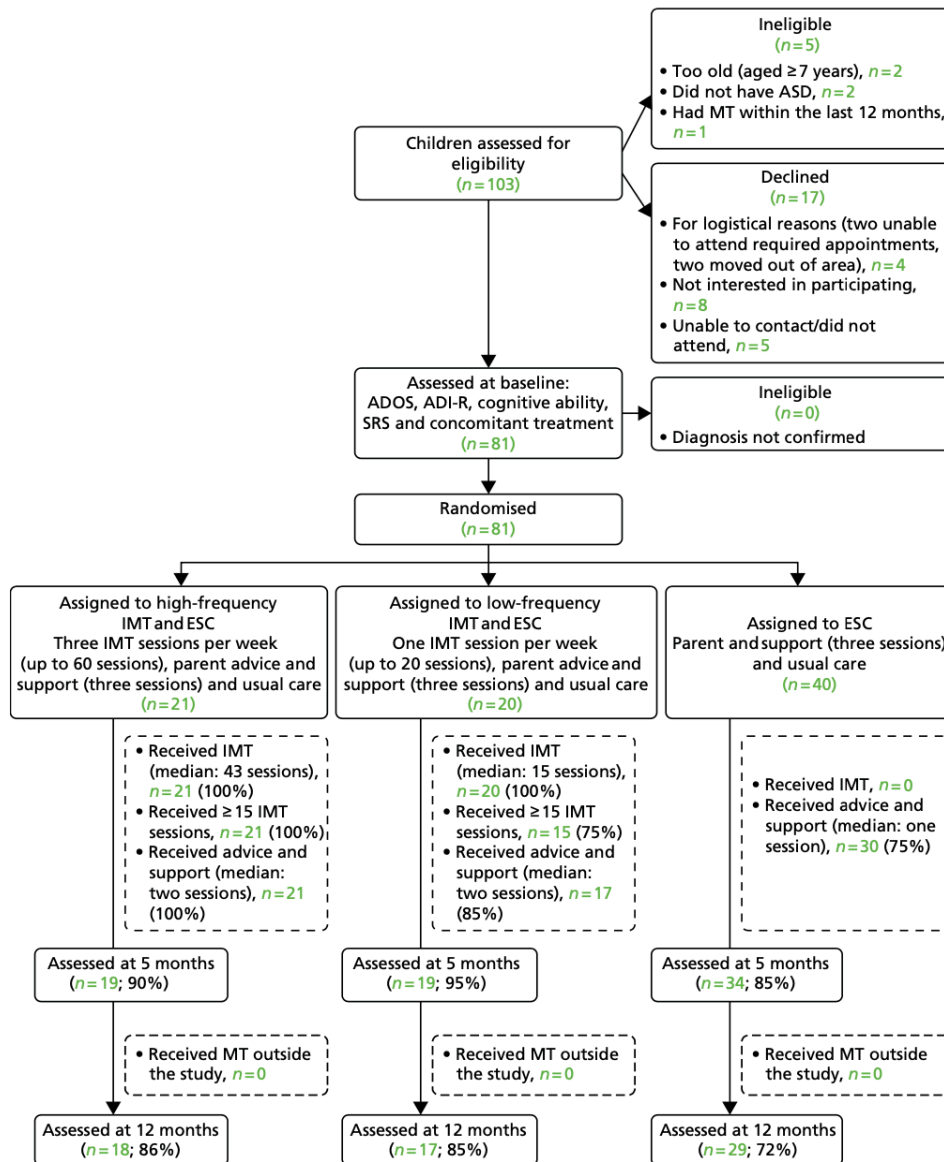


FIGURE 2 Study flow chart for 103 children assessed for the NIHR-funded arm of the trial. MT, music therapy.

Rysunek 4. Schemat badania TIME-A z uwzględnieniem 103 dzieci zrekrutowanych do projektu w Wielkiej Brytanii.

Problemy behawioralne dziecka mają negatywny wpływ na samopoczucie psychiczne rodziców, a wychowanie dziecka ze spektrum autyzmu dodatkowo intensyfikuje poziom stresu rodziców. W celu udzielenia odpowiedzi na drugie pytanie badawcze dotyczące wpływu IMT na poziom stresu rodziców i ich samopoczucie psychiczne, zastosowano *Parenting Stress Index – Short Form* (PSI-SF) oraz *Warwick–Edinburgh Mental Well-Being Scale*. Założyłam, że uczestniczenie dziecka w sesjach muzykoterapeutycznych wpłynie pozytywnie na obniżenie poziomu stresu rodziców i poprawę ich *well-being*. Łącznie 81 uczestników zostało zrandomizowanych w dwóch ośrodkach (Londyn, Cambridge), z których 41 dzieci zostało

przydzielonych losowo do MT (21-HI-MT; 20-LO-MT), a 40 do SC (zob. rysunek 5). Wyniki analiz statystycznych wskazały tylko jedną zależność zgodną z oczekiwaniami w aspekcie efektywności terapii dla odczuwanego stresu rodziców. Mianowicie, uzyskane rezultaty pozwalają stwierdzić, że **rodzice dzieci przydzielonych do IMT odczuwają niższy poziom stresu po 12 mies.** ( $p=0,007$ ; tabela 2). Moim zdaniem wynik ten jest ważny, gdyż zgodnie z modelem transakcyjnym obserwuje się dwukierunkową zależność, w której problemy z zachowaniem dzieci wpływają na poziom stresu u rodziców, a wysoki poziom stresu rodzicielskiego wpływa wtórnie na występowanie problemów z zachowaniem u dziecka. Jednak ku mojemu zaskoczeniu, uzyskane wyniki nie potwierdziły hipotezy o wzajemnej zależności efektywności terapii i poprawy samopoczucia psychicznego rodziców. Warto w tym miejscu zaznaczyć, że badania z tego roku dowodzą, że dobrostan psychiczny rodziców dzieci z autyzmem uwarunkowany jest głównie cechami osobowości rodziców, a nie zmiennymi związanymi z dzieckiem (Green i in., 2021).

Tabela 2. Stres rodzicielski i samopoczucie psychiczne rodziców dzieci ( $n=81$ )

Outcome	Treatment arm, mean score (SD)						Difference at			
	IMT			ESC			5 months		12 months	
	Baseline ( $n = 34$ )	5 months ( $n = 21$ )	12 months ( $n = 21$ )	Baseline ( $n = 40$ )	5 months ( $n = 19$ )	12 months ( $n = 22$ )	Difference (95% CI)	$p$ -value	Difference (95% CI)	$p$ -value
PSI-SF: <sup>a</sup> parental distress	31.85 (9.66)	29.76 (8.04)	31.86 (12.49)	31.43 (9.85)	35.16 (9.99)	35.59 (10.50)	-0.14 (-6.06 to 0.76)	0.12	-0.30 (-11.17 to -1.89)	0.007
PSI-SF: <sup>a</sup> dysfunctional interaction	32.41 (7.46)	30.48 (5.21)	29.14 (6.05)	29.88 (7.07)	32.42 (5.08)	31.18 (7.38)	-0.07 (-3.33 to 2.00)	0.617	-0.19 (-5.95 to 0.81)	0.13
PSI-SF: <sup>a</sup> difficult child	36.41 (8.86)	35.10 (6.77)	36.14 (8.85)	33.78 (8.60)	38.89 (7.41)	35.73 (8.41)	-0.19 (-6.26 to 1.17)	0.17	-0.04 (-5.62 to 4.00)	0.76
Total score on PSI-SF <sup>a</sup>	100.68 (22.90)	95.33 (15.71)	97.14 (24.05)	95.08 (21.22)	106.47 (18.23)	102.50 (24.26)	-0.19 (-13.94 to 1.62)	0.12	-0.22 (-20.66 to 0.15)	0.05
Total score on WEMWBS <sup>b</sup>	22.51 (3.81)	22.66 (4.60)	23.15 (2.72)	21.22 (4.19)	19.78 (4.36)	20.80 (4.31)	0.144 (-0.95 to 3.64)	0.24	0.24 (-0.35 to 4.02)	0.10

a Higher scores indicate higher levels of parental distress.  
b Higher scores indicate higher levels of mental well-being.

### **Analiza narzędzia wykorzystanego w projekcie TIME-A do oceny efektywności MT**

Wyniki badania opublikowane w artykule:

**Bieleninik, Ł., Posserud, M-B., Geretsegger, M., Thompson, G., Elefant, C., Gold, C. (2017).** Tracing the temporal stability of autism spectrum diagnosis and severity as measured by the Autism Diagnostic Observation Schedule: A systematic review and meta-analysis. *PLoS ONE*, 12(9), e0183160. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0183160>

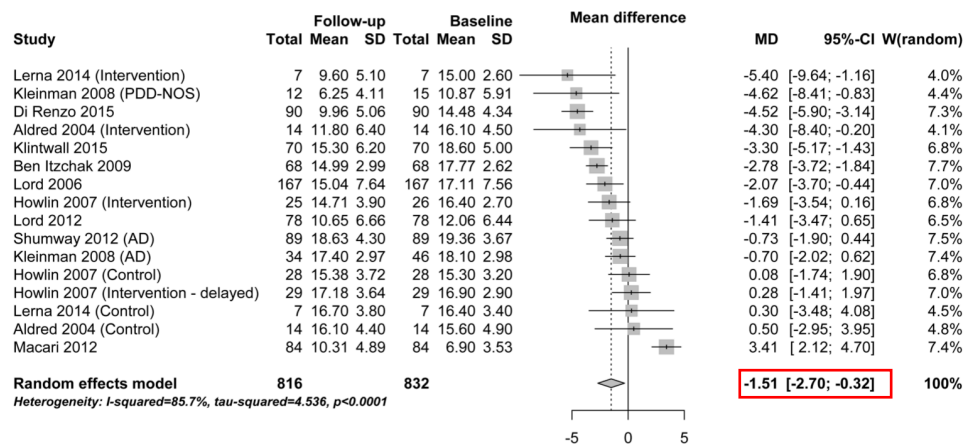
Celem czwartej pracy wchodzącej w skład mojego osiągnięcia naukowego stanowiącego podstawę ubiegania się o stopień doktora habilitowanego była ocena narzędzia ADOS, które zastosowano do oceny efektywności IMT w projekcie TIME-A. W 2014r. powołałam zespół, który przez trzy lata pracował wraz ze mną nad metaanalizą badań dotyczących stabilności diagnozy ASD i głębokości objawów autyzmu mierzonych za pomocą ADOS. Systematyczny przegląd opierał się na wytycznych PRISMA. Spośród 1443

potencjalnych artykułów, 44 zostało zakwalifikowanych do analizy w postaci pełnych tekstów, z których 40 badań zostało włączonych do analizy ilościowej (meta-analizy). W przeglądzie uwzględniliśmy dane pochodzące od 5771 uczestników w wieku od 7 mies. do 16,5 lat (nie było badań dotyczących dorosłych, które można by włączyć). Rozkład płci nie był podawany w każdym artykule i wahał się od 39% do 100% dla płci męskiej. Spośród włączonych badań: 10 obejmowało dzieci z grupy ryzyka, 29 obejmowało dzieci z rozpoznaniem ASD, a 1 badanie obejmowało oddzielne kohorty dla obu typów. Włączyliśmy 35 prospektywnych badań kohortowych i 5 RCTs. Obserwacja trwała od 12 mies. do 17 lat przy medianie 18,5 mies. (M=30,45; SD=34,22).

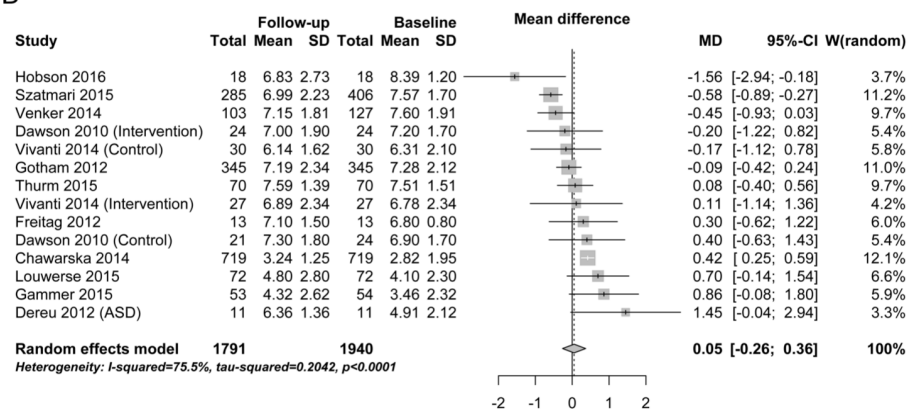
W pierwszej kolejności chciałam określić, jak kształtuje się czasowa dynamika objawów autyzmu w badaniach, w których zastosowano ADOS. Podstawą dociekań był wynik ogólny w skali ADOS, wyrażony w wynikach surowych (rysunek 5A) i wynikach skalibrowanych (*calibrated severity scores*, CSS; rysunek 5B), stąd przeprowadziłam dwie oddzielne metaanalizy. Co interesujące, **wyniki wskazały brak zmian wyniku ogólnego dla CSS, ale statystycznie istotną zmianę dla wyników surowych w czasie**. Wydaje się zatem, że względna poprawa wyniku ogólnego ADOS wyrażonego w wynikach surowych w porównaniu z brakiem poprawy dla wyników skalibrowanych może być pewnym artefaktem, który jest najpewniej efektem zmian między stosowanymi modułami (zadania różnią się w poszczególnych modułach treścią oraz liczbą pozycji). Moim zdaniem, uzyskane wyniki mają szczególne znaczenie w przypadku badań obejmujących małe dzieci, gdyż wtedy częściej stosuje się zmiany przy wyborze modułów; jak również w przypadku badań longitudinalnych. Użycie CSS jako miary nasilenia objawów autyzmu ma zatem na celu minimalizację wpływu cech fenotypowych osoby badanej, takich jak wiek i poziom ekspresji językowej, na podstawie których decyduje się o wyborze jednego z pięciu niezależnych modułów przy administracji aktualnej wersji ADOS.



A



B



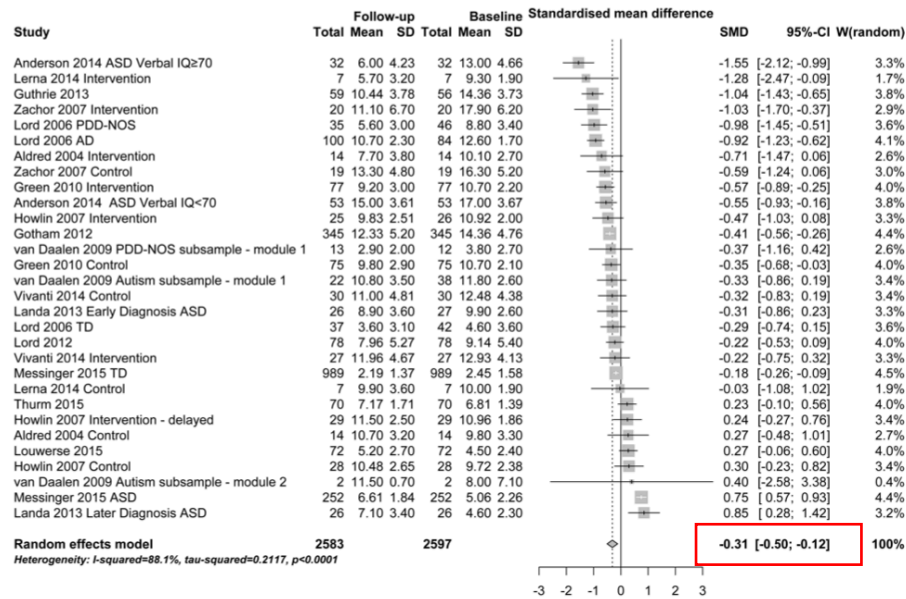
**Fig 2. Overall severity of autism symptoms.** Panel a—ADOS total scores. Panel b—Calibrated Severity Scores. MD—mean difference (difference in points on the scale from baseline to follow-up).

Rysunek 5. Wyniki meta-analizy dla całkowitego wyniku ADOS. A - dla wyników surowych; B - dla wyników skalibrowanych.

Drugim celem zaprojektowanej przez mnie metaanalizy było zbadanie, jak będzie kształtowała się dynamika objawów autyzmu ocenianych w podskalach ADOS. Zakładałam, że ograniczone i powtarzane wzorce zachowania są bardziej trwałe w czasie i mniej wrażliwe na cechy fenotypowe dzieci w porównaniu z afektem społecznym. Wydaje się bowiem, że większość interwencji terapeutycznych dedykowanych dzieciom ze spektrum autyzmu jest ukierunkowana przede wszystkim na rozwój umiejętności komunikacyjnych i społecznych, a w mniejszym stopniu koncentruje się na ograniczonych i powtarzających się szachowaniach. Wyniki metaanaliz były zgodne z moimi oczekiwaniami i wynikami poprzednich badań (m.in. Boyd, McDonoug, Bodfish, 2012). Wskazują one bowiem na **brak poprawy ograniczonych i powtarzanych zachowań** (rysunek 6B) oraz **niewielką poprawę dla afektu społecznego** (rysunek 6B). Osoby z ASD mogą wykazywać zatem poprawę w obszarze interakcji społecznych (umiejętności takie jak wskazywanie/ pokazywanie, gesty, kontakt wzrokowy, wspólna uwaga, i inne), jednak zmiana ta jest niewielka (-0,31 punktu). W mojej ocenie efekt

ten jest jednak mało wiarygodnym następstwem stosowania różnych modułów ADOS do diagnozy w ciągu życia osoby, zwłaszcza, iż rezultaty metaanalizy dla wyników skalibrowanych były stabilne w czasie. Brak zmian w wynikach dla obszaru ograniczone i powtarzane zachowanie jest prawdopodobnie spowodowany mniejszym wpływem zmiany modułu ADOS odnotowanej dla tego obszaru, na co wskazują także inni badacze (m.in. Hus i in., 2014).

A



B

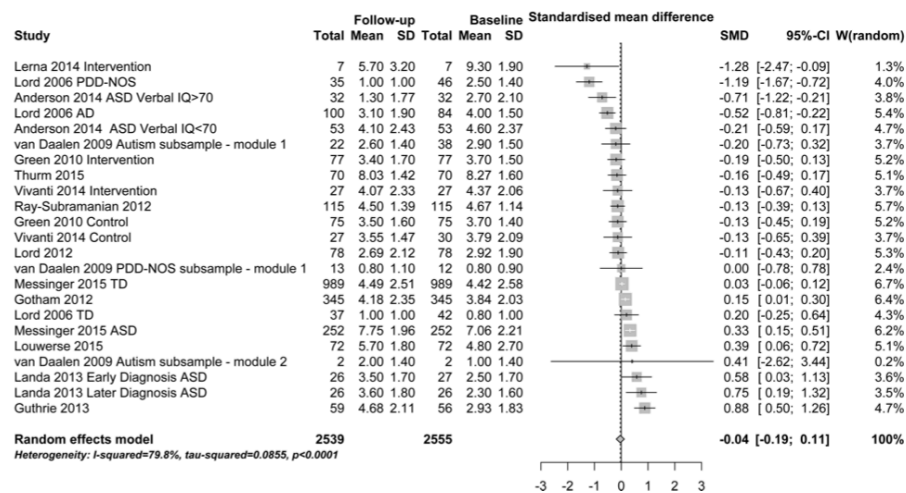


Fig 3. Severity of autism symptom subdomains. Panel a—social affect. Panel b—restricted and repetitive behaviour. MD—mean difference (difference in points on the scale from baseline to follow-up).

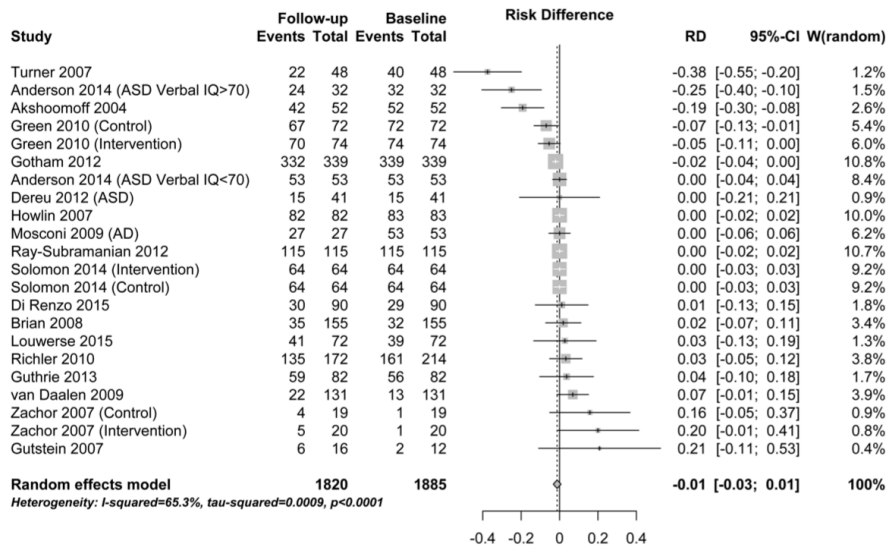
Rysunek 6. Rezultaty meta-analizy dla wyników ilościowych podskal ADOS. A – afekt społeczny; B - ograniczone i powtarzane zachowanie.

Kolejne meta-analizy przyniosły interesujące rezultaty w odniesieniu do porównań wyników algorytmu diagnostycznego przekraczającego punkty odsiewowe dla dwóch grup: autyzmu i dla spektrum autyzmu. **Zaobserwowałam bowiem brak istotnych statystycznie**



zmian, jeśli chodzi o spełnianie kryteriów ASD w czasie (rysunek 7A), przy jednoczesnej statystycznie istotnej zmianie co do spełniania kryteriów autyzmu we wskazanym okresie życia dzieci (rysunek 7B). Okazało się bowiem, że aż 18% dzieci nie spełniało kryteriów autyzmu podczas drugiej obserwacji. W mojej ocenie wskazuje to jednak nie tyle na to, że dzieci „pozbywają się” diagnozy, ile że niejako „przechodzą” od diagnozy autyzmu do innej kategorii diagnostycznej ze spektrum zaburzeń autyzmu.

A



B

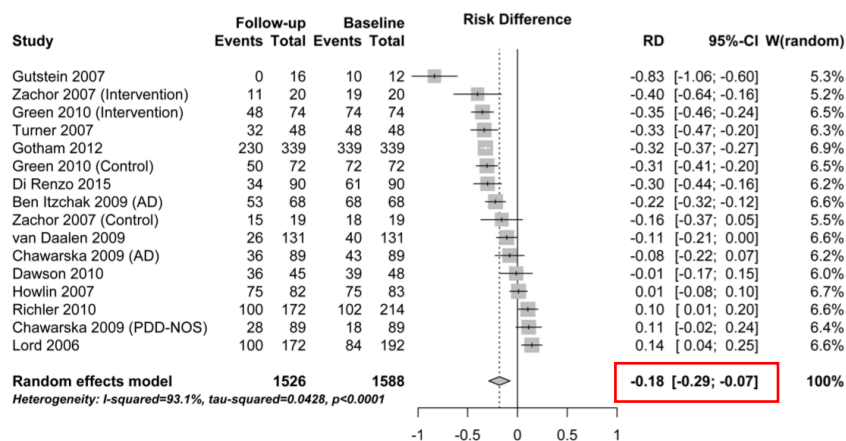


Fig 4. Proportion meeting diagnostic criteria. Panel a—autism spectrum disorder. Panel b—autism. RD—risk difference (difference in percentage of participants meeting the cut-off from baseline to follow-up).

Rysunek 7. Wyniki meta-analizy dotyczące proporcji spełniania algorytmu diagnostycznego przekraczającego punkty odsiewowe w czasie: A – dla spektrum autyzmu; B – dla autyzmu.

W świetle zgromadzonych danych i własnych obserwacji klinicznych, uważam, że podejście do zaburzeń autystycznych zależy w znacznym stopniu od dyscypliny naukowej, jaką reprezentuje specjalista badający dziecko. Społeczność kliniczna zaburzenia te postrzega

jako neurorozwojowe i względnie stabilne w czasie (w efekcie diagnozę zaburzeń ze spektrum autyzmu postrzega się często jak diagnozę „na całe życie”). Dla porównania, społeczność terapeutów czy badaczy traktuje zaburzenia ze spektrum autyzmu jako „podlegającą zmianie”. Z jednej strony przyjmują oni bowiem za wyznacznik (predyktor) rokowań rolę wieku rozpoczęcia wczesnej interwencji dla poprawy funkcjonowania w ciągu życia (Towle i in., 2020), z drugiej, oceniając efektywność różnorodnych form terapeutycznych przy pomocy narzędzi diagnostycznych (jak np. ADOS), oczekują zmiany w osiowych symptomach. Wyniki uzyskane na podstawie przeprowadzonych przeze mnie i współpracowników metaanaliz wskazują jednak, że ADOS nie jest czułą miarą trajektorii objawów. Jednocześnie wyniki potwierdzają pogląd, że ASD jest względnie stabilnym zaburzeniem neurorozwojowym, co zostało stwierdzone również w nowszych badaniach (Benedetto i in., 2021). Dobór narzędzia ADOS w projekcie TIME-A i wybranie zmiennej (skala afekt społeczny), dla której efektywność IMT była oceniana, pozwala mi aktualnie sądzić, że narzędzie to nie jest najbardziej optymalną miarą do weryfikacji założeń. Jednakże na etapie tworzenia protokołu badania i dostępnych w tamtym momencie danych – narzędzie to wydawało się najbardziej właściwe. W świetle przytoczonych argumentów, uważam, że ocena efektywności nefarmakologicznych i psychologicznych form interwencji dedykowanych dzieciom z ASD nie powinna koncentrować się na osiowych objawach autyzmu. Powinna ona skupiać się przede wszystkim na obszarach bardziej istotnych dla osób dotkniętych tym zaburzeniem, takich jak jakość ich życia oraz funkcjonowanie w społeczeństwie/w domu.

### ***Analiza dodatkowych form terapii otrzymywanych przez dzieci z ASD i ich kosztów***

Wyniki badania opublikowane w artykule:

**Bieleninik, Ł.,** Gold, C. (2021). Estimating Components and Costs of Standard Care for Children with Autism Spectrum Disorder in Europe from a Large International Sample. *Brain Sci.* 11, 340. <https://doi.org/10.3390/brainsci11030340>

Celem piątej pracy wchodzącej w skład mojego osiągnięcia naukowego stanowiącego podstawę ubiegania się o stopień doktora habilitowanego było ukazanie, jakie formy terapii otrzymują dzieci z ASD w krajach, które włączono do projektu TIME-A. Wiedza ta była szczególnie istotna, gdyż TIME-A jako badanie pragmatyczne osadzone było w kontekście „naturalnym”, stąd protokół badania zakładał, że dzieci (zarówno w grupie klinicznej, jak i kontrolnej) mogą korzystać z innych form terapeutycznych poza projektem. Drugim celem pracy było sprawdzenie czy pakiet otrzymanych form terapii/usług jest podobny w przypadku dzieci z krajów europejskich i pozaeuropejskich. Trzecim celem natomiast była ocena kosztów

poniesionych przez rodzinę w związku z korzystaniem z otrzymanych terapii/usług. Dodatkowo, problematyka ta była dla mnie istotna, gdyż większość badań dotyczących form terapii i usług dedykowanych dzieciom z ASD (w tym kosztów terapii) przeprowadzono w populacji amerykańskiej i brytyjskiej (Roggie, Janssen, 2019), podczas gdy niewiele danych odnosi się w tym względzie do krajów europejskich. Ostatnim nurtującym mnie problemem była ewaluacja kosztów w aspekcie wieku dziecka, nasilenia objawów autyzmu oraz jego funkcjonowania intelektualnego. Są to bowiem zmienne objaśniające stanowiące istotne predyktory nie tylko funkcjonowania dziecka, ale i kosztów ponoszonych przez rodziców (głównie ze względu na intensywność i różnorodność form terapii, w które zaangażowane jest dziecko). Z pierwotnej próby 364 dzieci uczestniczących w TIME-A, 357 miało pełne dane wyjściowe i zostało włączonych do tych analiz. Dane te były dostępne dla 217 dzieci z 5 krajów europejskich (Austria, Izrael, Włochy, Norwegia, Wielka Brytania) oraz dla 140 dzieci z krajów pozaeuropejskich (Australia, Brazylia, Korea, USA). Na potrzeby badania uwzględniłam tylko dane zebrane przed randomizacją na podstawie szczegółowej ankiety dotyczącej otrzymanych form terapii i bieżących wydatków poniesionych przez rodziny w ciągu ostatnich dwóch miesięcy.

W odniesieniu do pierwszego pytania badawczego, wyniki wskazały, że spośród 357 dzieci, 122 otrzymało specjalistyczne usługi związane z diagnozą autyzmu; 149 uczęszczało na terapię sensoryczno-motoryczną; 205 na terapię mowy/języka; 35 na terapię poprzez zabawę; 55 otrzymało interwencje behawioralne; 31 terapię umiejętności społecznych; 47 – rekreacyjną terapię zajęciową; a 59 otrzymało inne usługi (zob. tabela 4). **Łączna liczba godzin terapii w ciągu 2 mies. wyniosła 34 (SD=63; z szerokim zakresem od 0 do 372). Najczęstszymi formami terapii, które dzieci uzyskiwały były w kolejności: terapia mowy/języka (57%), terapia sensoryczno-motoryczną (42%) oraz specjalistyczne usługi w zakresie autyzmu (34%).** Najbardziej zaskakującym aspektem był dla mnie fakt, że tylko 15% dzieci uczęszczało na interwencje behawioralne. Chociaż dowody potwierdzają, że wczesna intensywna interwencja behawioralna jest jedną z najbardziej skutecznych metod terapeutycznych dla dzieci z ASD (Reichow i in., 2018), to moim zdaniem niski odsetek dzieci korzystających z tej formy terapii w projekcie TIME-A może wynikać z jej wysokich kosztów (Roddy i O'Neill, 2019), długiego czasu trwania i obciążającej rodzinę i dziecko intensywności. Uczestnictwo w terapię o wysokiej częstotliwości wymaga od rodziców konieczności dostosowania swojej aktywności zawodowej (niepełny wymiar pracy czy brak zatrudniania) do potrzeb dziecka, co w konsekwencji wpływa negatywnie na sytuację

finansową rodzin. Szczegółowe dane dotyczące otrzymanych form usług w ramach standardowego pakietu przez dzieci z ASD w projekcie TIME-A ilustruje tabela 4.

Tabela 4. Otrzymane formy usług w ramach standardowego pakietu przez dzieci z ASD w projekcie TIME-A (N = 357)

Service Type	N (%)	Number of Sessions <sup>1</sup> , M (SD)	Total Number of Hours <sup>1</sup> , M (SD)
<b>Interventions</b>			
Specialist autism services <sup>2</sup>	122 (34)	13.39 (15.55)	47.24 (91.14)
Sensory/motor therapy	149 (42)	13.01 (10.62)	9.16 (8.28)
Speech/language therapy	205 (57)	11.35 (9.04)	7.29 (5.23)
Play therapy	35 (10)	12.71 (10.28)	8.78 (5.47)
Behavioural intervention	55 (15)	24.2 (17.4)	33.11 (35.82)
Social skills training	31 (9)	9.42 (6.65)	8.88 (9.62)
Therapeutic recreational activities	47 (13)	9.3 (7.15)	11.23 (27.06)
Other services (see text)	59 (17)	11.39 (12.31)	11.88 (20.29)
<b>Schooling</b>			
Attends school	222 (62)		
Full-time child care (7 h or more per day)	80 (22)		
Part-time child care (Less than 7 h per day)	38 (11)		
None of the above	17 (5)		
<b>Other services</b>			
Institutional stay <sup>3</sup>	12 (3)	1.42 (0.67)	1.58 (1.38)
Outpatient services <sup>4</sup>	37 (10)	1.22 (0.75)	
<b>Medication<sup>5</sup></b>			
Diet	59 (17)		
<b>Caregiver time investment</b>			
Caregiver time spent on services (hours/week)	175 (49)	8.74 (13.24)	
<b>Reduction in working hours (percent of full-time)</b>			
Child care help	47 (13)		
Additional aide at school or home (hours/week)	108 (30)	19.16 (11.04)	

All data represent 2 months before the baseline. Total n = 357 (excluding 7 with missing quality of life scores at baseline). <sup>1</sup> Of those who received this service. <sup>2</sup> Specialist autism services includes special education schools specifically for children with ASD (German: Frühförderung; Norwegian: autismeteam). <sup>3</sup> Number of stays, total number of days. <sup>4</sup> Number of visits. <sup>5</sup> Number of days. SD, Standard Deviation; M, Median.

W odpowiedzi na drugie pytanie, **analizy wskazały, że wzorzec form terapii, z których korzystają dzieci ASD z krajów europejskich i pozaeuropejskich jest podobny (ale nie taki sam), przy czym najczęstszymi formami terapii dla dzieci z Europy była również terapia mowy/języka (31%), terapia sensoryczno-motoryczną (20%) oraz specjalistyczne usługi w zakresie autyzmu (14%).** Spośród 217 dzieci z krajów europejskich, 50 otrzymało specjalistyczne usługi w zakresie autyzmu; 72 otrzymało terapię sensoryczno-motoryczną; 109 (otrzymało terapię mowy/języka; 21 otrzymało terapię poprzez zabawę; 19 otrzymało interwencje behawioralne; 15 przeszło szkolenie z umiejętności społecznych; 25 uczestniczyło w rekreacyjnych zajęciach terapeutycznych; a 25 - otrzymało inne usługi. Szczegółowe dane ilustruje tabela 5.

Tabela 5. Otrzymane formy usług w ramach standardowego pakietu przez dzieci z ASD w Europie (N = 217)

Service Type	n (%)	Number of Sessions <sup>1</sup> , M (SD)	Total Number of Hours <sup>1</sup> , M (SD)
<b>Interventions</b>			
Specialist autism services <sup>2</sup>	50 (14)	7.48 (5.04)	14.94 (16.76)
Sensory/motor therapy	72 (20)	10 (7.13)	7.92 (5.38)
Speech/language therapy	109 (31)	8.72 (5.31)	6.16 (4.11)
Play therapy	21 (6)	15.52 (12.29)	10.63 (6.04)
Behavioural intervention	19 (5)	26.53 (22.14)	35.61 (34.62)
Social skills training	15 (4)	12.6 (7.73)	9.84 (9.98)
Therapeutic recreational activities	25 (7)	7.64 (4.68)	4.8 (2.62)
Other services	25 (7)	11.88 (12.3)	14.47 (28.14)
Schooling			
Attends school	121 (34)		
Full-time child care (7 h or more per day)	65 (18)		
Part-time child care (Less than 7 h per day)	26 (7)		
None of the above	5 (1)		
Other services			
Institutional stay <sup>3</sup>	10 (3)	1.5 (0.71)	1.8 (1.4)
Outpatient services <sup>4</sup>	24 (7)	1.12 (0.45)	
Medication <sup>5</sup>	55 (15)		
Diet	38 (11)		
Caregiver time investment			
Caregiver time spent on services (hours/week)	85 (24)	6.54 (14.84)	
Reduction in working hours (percent of full-time)	111 (31)	65.37 (32.24)	
Child care help	26 (7)		
Additional aide at school or home (hours/week)	77 (22)	19.81 (10.59)	

All data represent 2 months before the baseline. <sup>1</sup> Of those who received this service. <sup>2</sup> Specialist autism services includes special education schools specifically for children with ASD (German: Frühförderung; Norwegian: autismeteam). <sup>3</sup> Number of stays, total number of days. <sup>4</sup> Number of visits. <sup>5</sup> Number of days. SD, Standard Deviation; M, Mean.

Wyniki niniejszego badania wykazały, że istnieje różnorodność stosowanych form terapii dedykowanych dzieciom z ASD w kontekście międzynarodowym. Interesujące jest jednak, że najczęstszymi formami terapii niezależnie od kraju była terapia mowy/języka, terapia sensoryczno-motoryczną oraz specjalistyczne usługi w zakresie autyzmu. Uważam, że wysoki zakres usług, a także ich częstotliwość w perspektywie 2 mies. wskazuje na dobrą ich dostępność, a także na duże zróżnicowanie w wyborze, które uwarunkowane jest indywidualnymi potrzebami dziecka z ASD.

Wyniki badania potwierdziły oczekiwania dotyczące kosztów ponoszonych przez rodziców/opiekunów dzieci z ASD wskazując, że koszty form terapii i usług związanych z autyzmem są znaczne (tabela 6). Całkowite koszty (w tym koszty usług zdrowotnych i koszty społeczne) oszacowano na około 2834 EUR (84-26,051€) w okresie 2 mies. Szacunkowe całkowite koszty usług zdrowotnych wyniosły około 1209€ (0-24,780€), a pośrednie koszty społeczne 1624€ (0-6263€) w ciągu ostatnich 2 mies. Interesujące jest to, że specjalistyczne usługi w zakresie autyzmu, interwencja behawioralna i terapia mowy/języka wiązała się z najwyższymi kosztami dla całej kohorty (odpowiednio 315€; 284€; 251€; tabela 6). Wysokie koszty wiązały się również z terapią sensoryczno-motoryczną. Natomiast niższe koszty zaobserwowano dla terapii poprzez zabawę, rekreacyjną terapię zajęciową (w hipoterapię) oraz trening umiejętności społecznych. Należy jednak zauważyć, że inne koszty poniesione przez rodziców w tym zakresie również były znaczne. W odniesieniu do kosztów społecznych,

dotatkowa pomoc w szkole lub domu przyczyniła się do najwyższych kosztów, a następnie redukcja godzin pracy rodzica, opieka nad dziećmi/szkoła i zapewnienie pomocy dziecku w szkole lub w domu. Szczegółowe dane ilustruje tabela 6.

Tabela 6. Koszty usług w ramach standardowego pakietu otrzymane przez dzieci z ASD w projekcie TIME-A (N = 357)

	Service Type	M (SD)	Range
	Health services costs		
1	Specialist autism services	314.91 (976.21)	0 to 6048
	Sensory/motor therapy	213.18 (459.5)	0 to 3360
3	Speech/language therapy	251.42 (405.33)	0 to 2016
	Play therapy	31.54 (194.23)	0 to 2184
2	Behavioural intervention	283.64 (1363.25)	0 to 16,800
	Social skills training	12.36 (63.85)	0 to 672
	Therapeutic recreational activities	22.53 (178.11)	0 to 3024
	Other services	62.69 (347.51)	0 to 4200
	Institutional stay	2.75 (51.9)	0 to 980.61
	Outpatient services	1.18 (10.23)	0 to 131.64
	Medication	6.17 (29.45)	0 to 289.62
	Diet	7.22 (35.49)	0 to 455.14
	Sum of all health services costs	1209.59 (2159.84)	0 to 24,780
	Societal costs		
	Childcare/school	460.59 (160.32)	0 to 707.57
	Reduction in working hours	523.86 (642.82)	0 to 1946.08
	Child care help (private)	18.24 (124.99)	0 to 1645.54
	Additional aide at school or home	621.28 (1145.96)	0 to 4288
	Sum of all societal costs	1623.96 (1316.7)	0 to 6263.26
	Sum of all costs	2833.56 (2497.5)	84 to 26,050.54

SD, Standard Deviation; M, Median.

Biorąc pod uwagę kohortę europejską, to szacunkowe całkowite koszty świadczeń zdrowotnych wyniosły 740 EUR przy wartościach od 0 EUR do 14,042 EUR (tabela 7). Różnica pomiędzy dziećmi pochodzącymi z Europy oraz z poza Europy, uwidacznia się jednak dla trzech głównych form terapii wpływających na wysokie poniesione przez rodziców/opiekunów koszty. Mianowicie, to terapia mowy/języka, interwencja behawioralna oraz terapia sensoryczno-ruchowa (w tym fizjoterapia zajęciowa i fizjoterapia) wiązała się z najwyższymi kosztami dla dzieci z Europy (odpowiednio 201 EUR; 187 EUR; 123 EUR). Suma pośrednich kosztów społecznych wyniosła 1748 EUR, przy czym to dodatkowa pomoc w szkole lub w domu wiązała się z najwyższymi ze wszystkich kosztów społecznych, a następnie opieka nad dziećmi/szkoła, redukcja zatrudnienia i zapewnienie pomocy w opiece nad dziećmi. Całkowite koszty, w tym koszty usług zdrowotnych i koszty społeczne, oszacowano na około 2489 EUR w ciągu ostatnich 2 miesięcy w szerokim zakresie (od 101 EUR do 15 860 EUR). Szczegółowe dane ilustruje tabela 7.



Tabela 7. Koszty usług w ramach standardowego pakietu otrzymane przez dzieci z ASD w projekcie TIME-A pochodzące z Europy ( $n = 217$ )

	Service Type	M (SD)	Range
	Health services costs		
	Specialist autism services	98.29 (244.31)	0 to 1512
3	Sensory/motor therapy	122.28 (283.22)	0 to 1960
1	Speech/language therapy	200.77 (337.66)	0 to 2016
	Play therapy	48.39 (247.19)	0 to 2184
2	Behavioural intervention	186.79 (1102.81)	0 to 13,440
	Social skills training	13.8 (74.46)	0 to 672
	Therapeutic recreational activities	7.19 (35.73)	0 to 336
	Other services	53.01 (252)	0 to 2436
	Institutional stay	0 (0)	0 to 0
	Outpatient services	0.28 (4.12)	0 to 60.69
	Medication	1.73 (16.12)	0 to 228.97
	Diet	7.68 (38.99)	0 to 455.14
	Sum of all health services costs	740.19 (1322.7)	0 to 14,042
	Societal costs		
	Childcare/school	491.63 (155.58)	0 to 707.57
	Reduction in working hours	486.91 (589.6)	0 to 1946.08
	Child care help (private)	16.53 (110.73)	0 to 1320.9
	Additional aide at school or home	753.36 (1220.87)	0 to 4288
	Sum of all societal costs	1748.43 (1344.59)	0 to 6263.26
	Sum of all costs	2488.62 (1951.48)	101.14 to 15,856.9

SD, Standard Deviation; M, Mean.

W celu udzielenia odpowiedzi na ostatnie pytanie badacze, dokonałam analizy regresji (tabela 8), która wykazała, że całkowite koszty zdrowotne ponoszone przez rodziców dziecka z ASD rosną wraz z jego wiekiem i niepełnosprawnością intelektualną (IQ poniżej 70) zgodnie z założeniami. Natomiast przeciwnie niż zakładałam, wyniki nie potwierdziły, że koszty rosną z nasileniem autyzmu mierzonym za pomocą ADOS. Co interesujące, koszty opieki zdrowotnej rosną o 213€ z każdym kolejnym rokiem życia dziecka oraz o 566€, gdy dzieci były również niepełnosprawne intelektualnie. Nie zaobserwowano istotnych statycznie zależności pomiędzy kosztami społecznymi a weryfikowanymi zmiennymi.

Tabela 8. Predyktory kosztów

Predictor	Health costs <sup>1</sup>		Societal costs	
	b (SE)	p	b (SE)	p
Age (continuous)	213.20 (107.64)	0.048*	32.99 (79.46)	0.678
Severity (continuous)	-15.47 (19.13)	0.419	-16.68 (14.03)	0.235
Intellectual disability (binary)	566.11 (202.48)	0.005**	-71.95 (148.88)	0.629

Annotation: b, beta weight; SE, standard error; 1 excluding 1 outlier with very high costs; \* $p < .05$ ; \*\* $p < .01$ 

## Podsumowanie

Do chwili obecnej TIME-A to jedno z największych kontrolowanych i randomizowanych badań dotyczących oceny skuteczności nefarmakologicznej terapii u dzieci

z ASD na świecie reprezentujące fazę IIIA badań klinicznych, którego celem była ocena **efektywności improwizacyjnej muzykoterapii (IMT) jako metody wspomagającej interakcje społeczne dzieci ze spektrum autyzmu** (oceniane skalą ADOS). Przedstawione prace wchodzące w skład mojego osiągnięcia naukowego stanowiące podstawę ubiegania się o stopień doktora habilitowanego stanowią spójną całość realizacji projektu TIME-A. Pierwszy artykuł opisuje wyniki pilotażu opartego na kohorcie austriackiej, w którym zbadano stopień, w jakim zestaw procedur jest możliwy do wdrożenia w innych krajach oraz określono, że interwencja będzie odpowiednia do testowania na większej populacji. Drugi artykuł prezentuje analizy główne projektu zgodnie z ustalonym *a priori* planem statystycznym, podczas gdy kolejna praca artykuł ilustruje analizy podgrup i analizy dodatkowe. Wyniki badań projektu TIME-A w oparciu o międzynarodową kohortę dzieci z ASD nie potwierdziły założenia, że 5 mies. IMT wpływa na poprawę interakcji społecznych. Niemniej jednak efektywność 5 mies. IMT jako metody wspomagającej interakcje społeczne dzieci ze spektrum autyzmu stwierdzono w przypadku określonych podgrup (u chłopców, osób z diagnozą autyzmu w porównaniu z innymi zaburzeniami ze spektrum; osób z inteligencją poniżej przeciętnej w porównaniu z tymi będącymi w normie intelektualnej; oraz w tej grupie dzieci, która otrzymała co najmniej 15 sesji muzykoterapii). Wyniki wskazały także, że rodzice dzieci uczestniczących na IMT o niskiej intensywności widzą u nich poprawę ocenianej w trakcie terapii świadomości społecznej, natomiast rodzice dzieci uczestniczących na IMT o wysokiej intensywności stwierdzają mniej specyficznych wzorców ruchowych (manieryzmów) po zakończeniu terapii. Dodatkowo, jakość życia dzieci włączonych do badania po 5 mies. terapii była wyższa w grupie muzykoterapii o wysokiej intensywności w porównaniu do grupy kontrolnej. Czwarty artykuł prezentuje metaanalizę wyników nefarmakologicznych badań interwencyjnych, które również oceniały efektywność terapii przy pomocy narzędzia ADOS, a także wyniki obserwacyjnych badań mających na celu ocenę trajektorii osiowych symptomów autyzmu przy pomocy ADOS w kontekście zweryfikowania trafności użytego w projekcie narzędzia. Otrzymane wyniki w ramach przeprowadzonych meta-analiz skłaniają do refleksji na temat postrzegania zaburzeń autystycznych, jako spektrum, w którym poszczególne dzieci prezentują różne nasilenie symptomów. Mimo iż pod wpływem terapii objawy osiowe mogą niekiedy zmniejszyć swoje nasilenie, to niezależnie od obserwowanej poprawy indywidualnej - objawy osiowe pozostaną względnie stabilne w czasie na poziomie grupy. W jednym z listów redakcyjnych na łamach *Nordic Journal of Music Therapy* (Gold, Bieleninik, 2018) kontynuowałam tę dyskusję. Zwróciłam wówczas uwagę, że zmniejszenie nasilenia autyzmu nie jest „najwłaściwszym celem muzykoterapii”. Podkreśliłam



jednocześnie, że to, co dzięki podłużnym badaniom klinicznym wiadomo teraz, nie było znane w trakcie tworzenia protokołu badania. Poglądy na temat autyzmu zmieniają się w raz z kolejnymi publikacjami, a projekt TIME-A był częścią tej zmiany. Ostatni, piąty artykuł ilustruje analizę form terapii, jakie dzieci zrekrutowane do projektu otrzymywały w ramach standardowych procedur we własnym kraju oraz analizę ich kosztów poniesionych przez rodziców. Dane te są szczególnie cenne, gdyż po raz pierwszy ukazują całościowo, z jakich form terapii korzystają dzieci z ASD pochodzące z Europy (Austria, Izrael, Włochy, Norwegia, Wielka Brytania) oraz dzieci z krajów pozaeuropejskich (Australia, Brazylia, Korea, USA) oraz w jakiej intensywności.

**Projekt TIME-A sprawił, że o autyzmie w aspekcie zaangażowania dziecka w terapię, relację z terapeutą, stworzenia z dzieckiem dialogu poprzez niewerbalne formy komunikacji, a także samej muzykoterapii zaczęto dyskutować na nowo.** Dr Alan Turry (dyrektor Centrum Muzykoterapii Nordoff-Robbins w USA) o TIME-A napisał „*Though the findings were disappointing, the path to validating that improvisation is a bona fide evidence-based treatment for children on the spectrum has clearly begun*” (<https://autismspectrumnews.org/research-steps-in-establishing-music-therapy-as-an-effective-treatment-for-children-on-the-spectrum/>). Moje osobiste przekonanie dotyczące ważności zaangażowania dziecka we wspólną aktywność i stworzenia z nim pozawerbalnego dialogu i interakcji opartej na muzyce dla poprawy jego funkcjonowania, najlepiej odzwierciedlają słowa Donny Murray (wiceprezes ds. Programów klinicznych w *Autism Speaks*), która w wywiadzie dla CNN o TIME-A powiedziała „*If you can engage a child with autism with something appealing like music, at a minimum, that's a great start for some sort of social interaction [...]. Sometimes, when children are actively engaged like that, that's when you sort of open the doors for learning*” (<https://edition.cnn.com/2017/08/08/health/autism-music-therapy-study/index.html>). Znaczenie MT jako metody wspomagającej interakcje społeczne dzieci ze ASD zostało docenione także przed środowisko medyczne, stąd projektowi TIME-A został dedykowany list redakcyjny (Broder-Fingert, Feinberg, Silverstein, 2017) oraz zestaw „pytań quizowych” dla specjalistów nauk medycznych (*quiz questions for continuing medical education*, 2017, s. 571), oba na łamach *JAMA*, które koncentrowały się na wyjaśnieniu, czym jest IMT i jakie mogą płynąć z niej korzyści dla pacjentów ze spektrum autyzmu.

Brak standardowych instrumentów diagnostycznych w Polsce, jak ADOS i ADI-R w momencie rozpoczęcia TIME-A przyczynił się do tego, że polskie ośrodki naukowe nie przyłączyły się do projektu. W trakcie trwania TIME-A, również w Polsce prowadzone były

badania w ramach polskiej standaryzacji tych narzędzi (Chojnicka i Pisula, 2017; Chojnicka i Pisula, 2019), które sprawiły, że oba instrumenty diagnostyczne stosowane są aktualne także w naszym kraju. Potencjał wyników projektu TIME-A jest znaczny, zarówno dla badań podstawowych oceniających efektywność nefarmakologicznych i psychologicznych interwencji dla funkcjonowania osób z ASD w toku interwencji i po jej zakończeniu, jak i dla praktyki klinicznej. Dotyczy to przede wszystkim narzędzia ADOS, która wspólnie z ADI-R stanowi złoty standard w diagnostyce autyzmu na świecie.

### Literatura cytowana

1. American Psychiatric Association (2013). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders (5th ed.)*. Washington, DC, USA: American Psychiatric Association.
2. Barthémy, C.; Fuentes, J.; Howlin, P.; & van der Gaag, R. (2019). *People with Autism Spectrum Disorder. Identification, Understanding, Intervention (3rd ed.)*. Brussels: Autism Europe.
3. Benedetto, L., Cucinotta, F., Maggio, R., Germanò, E., De Raco, R., Alquino, A., Impallomeni, C., et al. (2021). One-Year Follow-Up Diagnostic Stability of Autism Spectrum Disorder Diagnosis in a Clinical Sample of Children and Toddlers. *Brain Sciences*, 11(1), 37.
4. Birnbaum, J. C. (2014). Intersubjectivity and Nordoff-Robbins music therapy. *Music Therapy Perspectives*, 32, 30–37. doi:10.1093/mtp/miu004
5. Boyd, B.A., McDonough, S.G., & Bodfish, J.W. (2012). Evidence-based behavioral interventions for repetitive behaviors in autism. *J Autism Dev Disord* 42(6), 1236–48.
6. Broder-Fingert, S., Feinberg, E., & Silverstein, M. (2017). Music Therapy for Children With Autism Spectrum Disorder. *JAMA*, 318(6), 523–524.
7. Bruscia, K. E. (2014). *Defining music therapy (3rd ed.)*. Gilsum, NH: Barcelona Publishers.
8. Catmur, C., Walsh, V., & Heyes, C. (2007). Sensorimotor learning configures the human mirror system. *Current Biology*, 17(17), 1527–1531.
9. Chiarotti, F., & Venerosi, A. (2020). Epidemiology of autism spectrum Disorders: A review of worldwide prevalence estimates since. *Brain Sci.* 10, 274.
10. Chojnicka, I., & Pisula, E. (2017). Adaptation and Validation of the ADOS-2, Polish Version. *Frontiers in Psychology*, 8, 1916
11. Chojnicka, I., & Pisula, E. (2019). Cross-Cultural Validation of the Polish Version of the ADI-R, Including New Algorithms for Toddlers and Young Preschoolers. *Child Psychiatry and Human Development*, 50(4), 591–604.
12. Feldman, R. (2007). Parent–Infant synchrony and the construction of shared timing; physiological precursors, developmental outcomes, and risk conditions. *Journal of Child Psychology and Psychiatry* 48, 329–354.
13. Fombonne, E. (2020). Epidemiological controversies in autism. *Swiss Arch. Neurol. Psychiatry Psychother* 171, w03084.
14. Geretsegger, M., Elefant, C., Mössler, K.A., & Gold, C. (2014). Music therapy for people with autism spectrum disorder. *Cochrane Database Syst Rev*, 6(6), CD004381.
15. Geretsegger, M., Holck, U., Carpena, J. A., Elefant, C., Kim, J., & Gold, C. (2015). Common Characteristics of Improvisational Approaches in Music Therapy for Children with Autism Spectrum Disorder: Developing Treatment Guidelines. *Journal of Music Therapy*, 52(2), 258–281.

16. Geretsegger, M., Holck, U. & Gold, C. (2012). Randomised controlled trial of improvisational music therapy's effectiveness for children with autism spectrum disorders (TIME-A): study protocol. *BMC Pediatr* 12, 2.
17. Gold, C. & Bieleninik, Ł. (2018) Authors' response. *Nordic Journal of Music Therapy*, 27(1), 90-92.
18. Green, C. C., Smith, J., Bent, C. A., Chetcuti, L., Sulek, R., Uljarević, M., & Hudry, K. (2021). Differential predictors of well-being versus mental health among parents of pre-schoolers with autism. *Autism*. <https://doi.org/10.1177/1362361320984315>
19. Hus, V., Gotham, K., & Lord, K. (2014). Standardizing ADOS domain scores: separating severity of social affect and restricted and repetitive behaviors. *J Autism Dev Disord* 44(10), 2400–12.
20. Johns, U.T. (2018). Exploring musical dynamics in therapeutic interplay with children: A multilayered method of microanalysis. *Nordic Journal of Music Therapy*, 27(3), 197-217.
21. Kanner, L. (1943). Autistic disturbances of affective contact. *Nerv Child*, 2, 217-250.
22. Lai, M. C., Kassee, C., Besney, R., Bonato, S., Hull, L., Mandy, W., Szatmari, P., & Ameis, S. H. (2019). Prevalence of co-occurring mental health diagnoses in the autism population: a systematic review and meta-analysis. *The Lancet Psychiatry*, 6(10), 819–829.
23. Mössler, K., Gold, C., Aßmus, J., Schumacher, K., Calvet, C., Reimer, S., . . . Schmid, W. (2019). The therapeutic relationship as predictor of change in music therapy with young children with autism spectrum disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 49, 2795–2809
24. Overy, K., & Molnar-Szakacs, I. (2009). Being together in time: musical experience and the mirror neuron system. *Music Percept* 26, 489–504.
25. Reichow, B. (2012). Overview of meta-analyses on early intensive behavioral intervention for young children with autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord*. 42(4), 512–20.
26. Reichow, B., Barton, E.E., Boyd, B.A. & Hume, K. (2018). Early intensive behavioral intervention (EIBI) for young children with autism spectrum disorders (ASD). *Cochrane Database Syst. Rev.* 10, CD009260.
27. Robb, S. (2013). Editorial: The power of the pilot. *Journal of Music Therapy*, 50(1), 3–5.
28. Rogge, N., & Janssen, J. (2019). The Economic Costs of Autism Spectrum Disorder: A Literature Review. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 49, 2873–2900.
29. Roddy, A.; O'Neill, C. (2019). The economic costs and its predictors for childhood autism spectrum disorders in Ireland: How is the burden distributed? *Autism* 23, 1106–1118.
30. Stern, D. N., Hofer, L., Haft, W. & Dore, J. (1985). Affect attunement: the sharing of feeling states between mother and infant by means of inter-modal fluency. In: Field and Fox (Eds.). *Social perception in infants* (pp. 249-268). Norwood, NJ: Ablex Publishing Corporation.
31. Towle, P.O., Patrick, P.A., Ridgard, T., Pham, S., & Marrus, J. (2020). Is Earlier Better? The Relationship between Age When Starting Early Intervention and Outcomes for Children with Autism Spectrum Disorder: A Selective Review. *Autism. Res. Treat.*, 2020, 7605876.
32. Trevarthen, C. & Malloch, S.N. (2000). The Dance of Wellbeing: Defining the Musical Therapeutic Effect. *Nordisk Tidsskrift for Musikterapi*, 9(2), 3-17.

33. Wan, C. Y., Demaine, K., Zipse, L., Norton, A., & Schlaug, G. (2010). From music making to speaking: engaging the mirror neuron system in autism. *Brain Research Bulletin* 82(3-4), 161–168.
34. Weitlauf, A. S., McPheeters, M. L., Peters, B., Sathe, N., Travis, R., Aiello, R., Williamson, E., Veenstra-VanderWeele, J., Krishnaswami, S., Jerome, R., & Warren, Z. (2014). *Therapies for Children With Autism Spectrum Disorder: Behavioral Interventions Update*. Agency for Healthcare Research and Quality (US).
35. Wong, C., Odom, S. L., Hume, K. A., Cox, A. W., Fetting, A., Kucharczyk, S., Brock, M. E., Plavnick, J. B., Fleury, V. P., & Schultz, T. R. (2015). Evidence-Based Practices for Children, Youth, and Young Adults with Autism Spectrum Disorder: A Comprehensive Review. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(7), 1951–1966.
36. World Health Organization (2018). *International Classification of Diseases for Mortality and Morbidity Statistics (11th Revision ed.)*. Geneva, Switzerland: World Health Organization. Available online: <https://icd.who.int/browse11/l-m/en> (accessed on 1 April 2020).
37. Yoo, G. E., & Kim, S. J. (2018). Dyadic drum playing and social skills: Implications for rhythm-mediated intervention for children with autism spectrum disorder. *Journal of Music Therapy*, 55, 340–375.

**5. Informacja o wykazywaniu się istotną aktywnością naukową albo artystyczną realizowaną w więcej niż jednej uczelni, instytucji naukowej lub instytucji kultury, w szczególności zagranicznej.**

- A)** Prezentacja wyników badań na 17 konferencjach międzynarodowych (15 wystąpień ustnych; wszystkie po uzyskaniu stopnia doktora) i 30 konferencjach ogólnopolskich (10 wystąpień po uzyskaniu stopnia doktora). Wyniki badań prezentowałam osobiście w formie ustnych referatów m.in. dla American Music Therapy Association (2020-USA online), podczas Autism-Europe International Congress (2016-Edynburg; 2013-Budapeszt), The Scientific Meeting for Autism Spectrum Conditions (2021-Niemcy online), International Congress of Psychology (2016-Japonia), World Congress of Music Therapy (2020-RPA online), European Music Therapy Conference (2019-Dania; 2016-Austria), Nordic Conference in Music Therapy (2018, 2016, 2015-Norwegia).
- B)** Współpraca z Claire Ghetti i Mari Hysing (University of Bergen, Norwegia), Christianem Gold, Ingrid Kvestad, Jörgiem Assmus i Torą Söderström Gaden (NORCE; Norwegia), Renee Romeo (King's College London, UK), Markiem Ettenberger (Hospital Universitario Fundacion Santa Fe de Bogotá i SONO - Centro de Musicoterapia, Kolumbia), Bente Johanne Vederhus (Haukeland University Hospital, Norwegia) w ramach projektu LongSTEP (*Longitudinal study of music therapy's effectiveness for premature infants and their caregivers: International randomized trial*) finansowanego przez Research Council

of Norway z programu BEHANDLING (19 mln NOK). Efektem projektu są dwie publikacje (poniżej), a kolejne w przygotowaniach.

- Ghetti, C. M., Vederhus, B. J., Gaden, T. S., Brenner, A. K., **Bieleninik, Ł.**, Kvestad, I., Assmus, J. & Gold, C. (2021). Longitudinal Study of music Therapy's Effectiveness for Premature infants and their caregivers (LongSTEP): Feasibility study with a Norwegian cohort. *Journal of Music Therapy*. doi:10.1093/jmt/thaa023
- Ghetti, C. M., **Bieleninik, Ł.**, Hysing, M., Kvestad, I., Assmus, J., Vederhus, B., Romeo, R., Ettenberger, M., Arnon, S., Gaden, T. S., & Gold, C. (2019). Longitudinal study of music therapy's effectiveness for premature infants and their caregivers (LongSTEP): protocol for an international randomized trial. *BMJ Open*, 9(8), e025062. doi:10.1136/bmjopen-2018-025062

C) Współpraca z Ludwiką Konieczna-Nowak, Sarą-Knapik Szewda i Justyną Kwaśniok (Akademia Muzyczna im. Karola Szymanowskiego w Katowicach) oraz Claire Ghettii (University of Bergen, Norwegia) w ramach projektu pt. *Muzykoterapia dla wcześniaków i ich rodziców na oddziale intensywnej terapii noworodka i po zakończeniu hospitalizacji: studium wykonalności* prowadzonego w Polsce (03. 2018-12. 2018) i finansowanego przez UG. Efektem projektu są publikacje:

- **Bieleninik, Ł.**, Konieczna-Nowak, L., Knapik-Szweda, S., & Kwaśniok, J. (2020). Evaluating feasibility of the LongSTEP (Longitudinal study of music therapy's effectiveness for premature infants and their caregivers) protocol with a Polish cohort. *Nordic Journal of Music Therapy*, 29(5), 437-459. doi: 10.1080/08098131.2020.1781233
- **Bieleninik, Ł.**, Konieczna-Nowak, L., Knapik-Szweda, S., & Kwaśniok, J. (2020). Music therapy for preterm infants and their parents during NICU stay and beyond: current recommendations for clinical practice in Poland. *Health Psychology Report*, 8(3), 189-201. <https://doi.org/10.5114/hpr.2020.97346>
- **Bieleninik, Ł.**, & Ghetti, C. (2019). Music therapy for preterm infants and their parents: A path forward for research in Poland. *Roczniki Psychologiczne/Annals of Psychology*, 22(2), 135–150. doi: 10.18290/rpsych.2019.22.2-3
- **Bieleninik, Ł.**, Konieczna-Nowak, L. (red.) (2020). *Muzykoterapia dzieci przedwcześnie urodzonych i ich rodzin. Teoria i praktyka*. Warszawa: Wydawnictwo Naukowe Scholar.
- **Bieleninik, Ł.** (2020). Dobra praktyka kliniczna we współczesnych badaniach. Początek badań klinicznych nad muzykoterapią dla wcześniaków w [w:] Bieleninik, Ł., Konieczna-Nowak, L. (red.). *Muzykoterapia dzieci przedwcześnie urodzonych i ich rodzin. Teoria i praktyka* (s. 175 - 188). Warszawa: Wydawnictwo Naukowe Scholar.
- **Bieleninik, Ł.**, Konieczna-Nowak, L. (2020). Evidence-based practice w perspektywie ogólnej i muzykoterapeutycznej [w:] Bieleninik, Ł., Konieczna-Nowak, L. (red.). *Muzykoterapia dzieci przedwcześnie urodzonych i ich rodzin. Teoria i praktyka* (s. 101 - 117). Warszawa: Wydawnictwo Naukowe Scholar.
- **Bieleninik, Ł.**, Konieczna-Nowak, L. (2020). *Muzykoterapia dla dzieci przedwcześnie urodzonych i ich rodzin w warunkach szpitalnych oraz po wypisie do domu – zalecenia* [w:] Bieleninik, Ł., & Konieczna-

Nowak, L. (red.). *Muzykoterapia dzieci przedwcześnie urodzonych i ich rodzin. Teoria i praktyka* (s. 239 - 252). Warszawa: Wydawnictwo Naukowe Scholar.

- D)** Współpraca z Christianem Gold, Karin Mössler, Jörg Assmus (Uni Research, Norwegia), Moniką Geretsegger (Aalborg University, Dania), Grace Thompson (University of Melbourne, Australia), Gustavo Gattino (Rio Grande do Sul Federal University, Brazylia), Cochavit Elefant (University of Haifa, Izrael), Tali Gottfried (David-Yelin College in Israel, Izrael), Robertą Iglizzi i Ferdinando Suvini (IRCCS Stella Maris Foundationz, Włochy), Filippo Muratori (IRCCS Stella Maris Foundationz, University of Pisa, Włochy), Jinah Kim (Jeonju University, Korea) Mikem J. Crawford (Imperial College London, UK), Helen Odell-Miller, Amelią Oldfield, Órla Casey i Johanną Finnemann (Anglia Ruskin University, UK), Johnem Carpente (Molloy College, USA), A-La Park (The London School of Economics and Political Science, UK), Enzo Grossi (Villa Santa Maria Institute, Włochy) w ramach projektu TIME-A (*Trial of improvisational music therapy's effectiveness for children with Autism; 2012-2016*) finansowanego przez Research Council of Norway (12 mln NOK). Efektem projektu są publikacje, które wchodzą w ramach osiągnięcia przedłożonego w autoreferacie. Kolejna (ostatnia publikacja) na temat analizy opłacalności (*cost-effectiveness analysis*) jest w trakcie realizacji.
- E)** Współpraca z Claire Ghetti (University of Bergen, Norwegia) i Christianem Gold (Uni Research Health, Norwegia) nad meta-analizą badań dotyczą efektywności muzykoterapii u wcześniaków i ich rodziców w roli pierwszego (wiodącego) autora artykułu. Projekt finansowany w ramach uzyskanego grantu by POLYFON (30,240 NOK). Wyniki metaanalizy prezentowałam osobiście w formie ustnego wystąpienia podczas 31st International Congress of Psychology w Yokohama (Japonia, 24-29.07.2016) oraz podczas 10th European Music Therapy Congress (Austria, 5-9.07.2016). Efektem projektu jest publikacja:

**Bieleninik, Ł., Ghetti, C., & Gold, C. (2016).** Music Therapy for Preterm Infants and Their Parents: A Meta-analysis. *Pediatrics*, 138(3), e20160971. doi: 10.1542/peds.2016-0971.

- F)** Współpraca z Maj-Britt Posserud (University of Bergen i Haukeland University Hospital, Norwegia), Cochavit Elefant (University of Haifa, Izrael), Grace Thompson (University of Melbourne, Australia), Moniką Geretsegger i Christianem Goldem (Uni Research Health, Norwegia) na temat projektu dotyczącego oceny stabilności głębokości autyzmu mierzonego przy pomocy narzędzia ADOS w roli pierwszego (wiodącego) autora artykułu. Wyniki meta-analizy prezentowałam osobiście w formie ustnego wystąpienia podczas 11th Autism-Europe International Congress (Edynburg, 16-18.09.2016). Efektem projektu

jest publikacja:

**Bieleninik, Ł.**, Posserud, M-B., Geretsegger, M., Thompson, G., Elefant, C., Gold, C. (2017). Tracing the temporal stability of autism spectrum diagnosis and severity as measured by the Autism Diagnostic Observation Schedule: A systematic review and meta-analysis. *PLoS ONE*, 12(9), e0183160. doi: 10.1371/journal.pone.0183160

- G)** Współpraca z Ezechiele Giannelli (University of Salento, Włochy), Omar C. G. Gelo (Sigmund Freud University, Austria; University of Salento) oraz Christianem Gold i Claire Ghetti (NORCE, Norwegia) w ramach przeprowadzenia systematycznego przeglądu i meta-analizy dotyczącej dialektycznej terapii behawioralnej i 12-stopniowych programów leczenia zaburzeń uzależnień. Efektem współpracy jest publikacja:

Giannelli, E., **Bieleninik, Ł.**, Ghetti, C., Gelo, O., Gold, C. (2019). Dialectical behaviour therapy and 12-step programs for substance use disorder: A systematic review and meta-analysis. *Counselling and Psychotherapy Research*, 19(3), 274-285. doi: 10.1002/capr.12228

- H)** Współpraca z Laurą Fusar-Poli oraz Natascia Brondino (University of Pavia, Włochy) oraz Xi-Jing Chen (Chinese Academy of Science, Chiny) nad systematycznym przeglądem i meta-analizą badań dotyczących efektywności muzykoterapii u pacjentów z demencją w aspekcie funkcjonowania poznawczego. Efektem współpracy jest publikacja:

Fusar Poli, L., **Bieleninik, Ł.**, Chen C. X., Brondino, N., & Gold, C. (2017). The effect of music therapy on cognitive functions in patients with dementia: a systematic review and meta-analysis. *Aging & Mental Health*, 22(9), 1103–1112. <http://doi.org/10.1080/13607863.2017.1348474>

- I)** Współpraca z Xi-Jing Chen (Jiangxi University of Chinese Medicine, Chiny), Tor Olav Heldal (Health and Social Care, Norwegia), Monika Geretsegger, Christian Gold i Karin Mössler (Uni Research Health, Norwegia) nad projektem aktualizacji systematycznego przeglądu w ramach Cochrane na temat muzykoterapii dedykowanej pacjentom ze schizofrenią i zaburzeniami schizotypowymi. W ramach współpracy powstała następująca publikacja:

Geretsegger, M., Mössler, K.A., **Bieleninik, Ł.**, Chen, X., Heldal, T., & Gold, C. (2017). Music therapy for people with schizophrenia and schizophrenia-like disorders. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, 5(CD004025). doi: 10.1002/14651858.CD004025.pub4

- J)** Współpraca z Markiem Ettenberger (University Hospital Fundacion Santa Fe de Bogota, SONO-Centro de Musicoterapia, Kolumbia), Shulamit Epstein i Cochavit Elefant (University of Haifa, Izrael) nad cyklem artykułów dotyczących efektywności muzykoterapii prowadzonej na oddziale intensywnej terapii noworodka w aspekcie więzi emocjonalnej kształtującej się między matkami a wcześniakami. W ramach współpracy powstała następująca publikacja (dwie kolejne w przygotowaniu):

Ettenberger, M.; **Bieleninik, Ł.**; Epstein, S.; Elefant, C. (2021). Defining Attachment and Bonding: Overlaps, Differences and Implications for Music Therapy Clinical Practice and Research in the Neonatal Intensive Care Unit (NICU). *Int. J. Environ. Res. Public Health*, 18, 1733. doi: 10.3390/ijerph18041733

**K)** Kierownik projektu pt. *Impact of Premature Childbirth on Parental Outcomes During Baby's NICU Stay and Beyond* (ClinicalTrials.gov Identifier: NCT04118751) prowadzonego w ramach współpracy z Gdańskim Uniwersytetem Medycznym (Joanna Preis-Orlikowska). W ramach tego projektu planowane są cztery publikacje (dwie ukazały się, jedna została zgłoszona do publikacji, a ostatnia w przygotowaniu).

- **Bieleninik, Ł.**, Lutkiewicz, K., Jurek, P., Bidzan, M. (2021). Paternal Postpartum bonding and its Predictors in the Early Postpartum Period: Cross-sectional Study in a Polish Cohort. *Frontiers in Psychology*, 12, 628650, doi: 10.3389/fpsyg.2021.628650
- Lutkiewicz, K., **Bieleninik, Ł.**, Cieślak, M., Bidzan, M. (2020). Maternal–Infant Bonding and Its Relationships with Maternal Depressive Symptoms, Stress and Anxiety in the Early Postpartum Period in a Polish Sample. *Int. J. Environ. Res. Public Health*, 17(15) 5427; doi:10.3390/ijerph17155427

**L)** Współpraca z Markiem Ettenberger (University Hospital Fundacion Santa Fe de Bogota, SONO-Centro de Musicoterapia, Kolumbia) w ramach prac edytorskich specjalnego zeszytu pt *Auditory Experience, Music and Voice across the Perinatal Period: Innovations in Theory, Research and Clinical practice dla czasopisma naukowego IJERPH [MNiSW 2021=70; IF=2.849]*.

**M)** Wydanie trzech pozycji książkowych, które zostały dofinansowane przez Uniwersytet Gdański:

- **Bieleninik, Ł.**, & Konieczna-Nowak, L. (red.) (2020). *Muzykoterapia dzieci przedwcześnie urodzonych i ich rodzin. Teoria i praktyka*. Warszawa: Wydawnictwo Naukowe Scholar.
- Bidzan, M., **Bieleninik, Ł.**, & Szulman-Wardal, A. (red.) (2015). *Niepelnosprawność ruchowa w ujęciu biopsychospołecznym. Wyzwania diagnozy, rehabilitacji i terapii*. Gdańsk: Harmonia Universalis.
- **Bieleninik, Ł.** (2012). *Dzieci przedwcześnie urodzone w percepcji matek*. Gdańsk: Harmonia Universalis.

## 6. Informacja o osiągnięciach dydaktycznych, organizacyjnych oraz popularyzujących naukę lub sztukę.

**A)** Zajęcia dydaktyczne

**(1) Uniwersytet Gdański - od 2018 roku jako adiunkt (przedmioty prowadzone w różnych latach)**



- Seminarium kursowe
- Seminarium magisterskie
- Wprowadzenie do metodologii badań klinicznych w psychologii (wykład, 15h, IV i V r. psychologii)
- Introduction to systematic reviews methodology (ćwiczenia, 30h, IV i V r. psychologii)
- Academic Writing (wykład, 10h w ramach studiów podyplomowych Start for Ph.D. in Social Sciences)
- Introduction to psychology (ćwiczenia, 60h, III roku psychologii)
- Diagnoza dziecka w wieku szkolnym (ćwiczenia, 15h, III roku psychologii)
- Diagnostyka inteligencji w ciągu życia (ćwiczenia, 15h, III roku psychologii)
- Psychologiczne aspekty prokreacji (ćwiczenia, 30h, IV i V r. psychologii)
- Parcjalne zaburzenia rozwoju psychoruchowego (wykład, 15h, studenci logopedii)
- Zaburzenia komunikacji u dzieci autystycznych (ćwiczenia, 15h, studenci logopedii)
- Elementy psychologii klinicznej (wykład, 15h, studenci logopedii)

**(2) Uniwersytet Gdański - od 2009 roku jako wykładowca, a później profesor wizytujący (przedmioty prowadzone w różnych latach)**

- Zastosowanie Skali Bayley III (ćwiczenia, 15h, IV i V r. psychologii)
- Diagnoza MMPI (ćwiczenia, III r. psychologii)
- Psychologiczne aspekty prokreacji (ćwiczenia, 30h, IV I V r. psychologii)
- Praca z dzieckiem z mózgowym porażeniem dziecięcym i jego rodziną (ćwiczenia, 15h, IV I V r. psychologii)

**(3) Akademia Wychowania Fizycznego i Sportu im. Jędrzeja Śniadeckiego w Gdańsku (od 2020)**

- Conducting a systematic review of health care interventions (wykład, 12h w ramach studiów podyplomowych Start for Ph.D. in Sport and Fitness Science)

**(4) Gdańska Wyższa Szkoła Humanistyczna (2009-2011)**

- Praca z dziećmi z całościowymi zaburzeniami rozwoju i ich rodzinami (ćwiczenia w ramach studiów podyplomowych z Pedagogiki Leczniczej)
- Praca z dziećmi z ADHD (j.w.)

**(5) English Unlimited (2009-2012)**

- Psychologia (wykład, 30h w ramach studiów podyplomowych)

**B) Gościnne wykłady**

**(1) Akademia Muzyczna im. Karola Szymanowskiego w Katowicach (2018 – 2020)**

- Metodologia badań muzykoterapeutycznych w praktyce
- Trial of improvisational music therapy's effectiveness for children with Autism
- Muzykoterapia wcześniaków i ich rodziców na OITN

**(2) Uniwersytet w Bergen (2016)**

- A pragmatic view on randomized trials in health care
- LongSTEP as an example of feasibility study

**(3) Instytut Psychologii Vietnam National University Hanoi (2013)**

- Linguistic functioning in children from twin pregnancies with twin-twin transfusion syndrome (TTTS)

**(4) Graduate College of Social Work, University of Houston (2013)**

- Possible disorders in patients functioning after TBI communication barriers of TBI Patients and patients with dementia;
- Long term care for older people in Poland and Relationship between communication and pathological pregnancy in early childhood

**(5) GAMUT research forum (2020)**

- The benefits of participation in the multi-site international randomized controlled trial LongSTEP: a path forward for further research and clinical practice in Poland

**C) Opieka naukowa nad studentami**

**(1) Promotor 16 prac magisterskich (8 w toku) - Instytut Psychologii, Wydział Nauk Społecznych, Uniwersytet Gdański (od 2018)**

**(2) Wyniki badań dwóch moich magistrantek zostały złożone do publikacji w czasopiśmie o przypisanym IF:**

- Agata Stark, Łucja Bieleninik. Empathy and its relationships with attachment and socio-demographic factors in the early adolescence: Cross-Sectional Study in a Polish Cohort.
- Agata Słowińska, Łucja Bieleninik. Alexithymia and its relationships with empathy and social abilities in the early adolescence in a Polish cohort.

**(3) Recenzent prac magisterskich, Instytut Psychologii, Wydział Nauk Społecznych, Uniwersytet Gdański**

**(4) Promotor pomocniczy przy dwóch rozprawach doktorskich:**

- Paulina Golińska pt. *Objawy związane z zaburzeniem funkcji płatów czołowych a poczucie obciążenia osób z chorobą Parkinsona*. Promotor: prof. dr hab. Mariola Bidzan

- Monika Sawicka *pt. Przekonania na temat emocji i unikanie dystresu w chorobach przewlekłych ze współwystępującym bólem*. Promotor: prof. dr hab. Mariola Bidzan

(5) Uczestniczki mojego seminarium kursowego (Julia Sklenarska, Agata Słowińska, Agata Stark) zajęły III miejsce w konkursie seminariów kursowych realizowanych w Instytucie Psychologii w 2018 roku za projekt badaczy *pt. „Wpływ posiadania rodzeństwa i zwierząt domowych na poziom empatii u dzieci z klas 4-6 szkoły podstawowej”* realizowany pod moim kierunkiem. Efektem realizowanego projektu badawczego było również stworzenie oficjalnej polskiej wersji kwestionariusza: Kwestionariusz Empatii dla Dzieci i Młodzieży EmQue – CA – wersja polska (<https://www.focusonemotions.nl/empathy-questionnaire>), który jest w trakcie walidacji.

(6) Opieka nad studentami w charakterze opiekuna roku (od 2019)

#### D) Osiągnięcia organizacyjne

- (1) Członek Zarządu Gdańskiego Oddziału Polskiego Towarzystwa Psychologicznego (2012-2015)
- (2) Przewodnicząca sympozjum/Sesji: (1) *The contribution of MT to assessment and to conceptualisation of emotion dysregulation during childhood* podczas 10th European Music Therapy Conference w Wiedniu organizowanego University of Music and Performing Arts Vienna, Austrian Association of Music Therapists, Viennese Institute for Music Therapy we współpracy z European Music Therapy Confederation (5-9.06.2016); (2) *pt. Troska o zdrowie w okresie pre- i perinatalnym* podczas X Kongresu Psychologii Zdrowia organizowanego przez Uniwersytet Gdański (15-17.05.2015)
- (3) Członek Komitetu Naukowego: Sympozjum *pt. Pacjent w sercu oddziaływań medycznych* organizowanego przez Uniwersytet Gdański (19.03.2019)
- (4) Przewodnicząca Komitetu Organizacyjnego X Konferencji Psychologii Zdrowia organizowanego przez Uniwersytet Gdański (15-17.05.2015)
- (5) Członek Komitetu Organizacyjnego: (1) XV Jubileuszowy Międzynarodowy Kongres Polskiego Towarzystwa Neuropsychologicznego (24-25.09.2012); (2) XXII Ogólnopolska Konferencja Psychologii Rozwojowej (27-29.05.2013); (3) 36 Kongres Polskiego Towarzystwa Psychologicznego (21-24.09.2017); (4) XXIII Ogólnopolska Konferencja Naukowa (12-13.05.2018), (5) 28. Kolokwia Psychologiczne PAN (17-19.06.2019)

- 7. Oprócz kwestii wymienionych w pkt. 1-6, wnioskodawca może podać inne informacje, ważne z jego punktu widzenia, dotyczące jego kariery zawodowej.**
- A)** Laureatka stypendium Ministra Nauki i Szkolnictwa Wyższego dla młodych naukowców, którzy prowadzą innowacyjne badania naukowe na wysokim poziomie i cieszą się imponującym dorobkiem naukowym o wysokim prestiżu i międzynarodowym zasięgu w 2019r.
- B)** Laureatka Nagrody Prezesa Polskiej Akademii Nauk im. Andrzeja Malewskiego w 2018 roku;
- C)** Laureatka Konkursu o Nagrodę Oddziału PAN w Gdańsku dla młodych naukowców za najlepszą pracę twórczą w kategorii nauk medycznych opublikowaną w 2017 r. Za publikację: *Effects of Improvisational Music Therapy vs Enhanced Standard Care on Symptom Severity Among Children With Autism Spectrum Disorder. The TIME-A Randomized Clinical Trial*. JAMA, Journal of the American Medical Association;
- D)** Laureatka Nagrody Teofrasta w kategorii najpopularniejsza książka psychologiczna roku wybrana przez czytelników czasopisma „Charaktery” w 2012 roku za monografię „*Dzieci urodzone przedwcześnie w percepcji matek*”.
- E)** Laureatka nagród za sesje plakatowe: (1) 1 miejsce podczas VIII Ogólnopolskiej Konferencji z cyklu “Kobieta w kulturze”, 2013; (2) 1 i 2 miejsce podczas X Jubileuszowej Ogólnopolskiej Konferencji pt. Bliźnięta w różnych okresach życia: aspekty biologiczne, medyczne, psychologiczne i społeczne, 2010; (3) 2 miejsce podczas konferencji pt. Rozwój poprzez terapie - Biopsychospołeczne aspekty pedagogiki leczniczej, 2011; (4) 2 miejsce podczas konferencji pt. Rodzina i praca z perspektywy wyzwań i zagrożeń. Relacja rodzina - praca w warunkach kryzysu, 2009.

Łucja Bieleninik

.....  
(podpis wnioskodawcy)