

PAULINA ALBIŃSKA

Wyższa Szkoła Biznesu i Nauk o Zdrowiu
Instytut Nauk Społecznych
90-361 Łódź, ul. Piotrkowska 278
Centrum Psychoterapii Cardoner
90-058 Łódź, ul. Sienkiewicza 60
e-mail: albinskapaulina@yahoo.com

POSTAWY RODZICÓW WOBEC DZIECI Z WRODZONĄ ŁAMLIWOŚCIĄ KOŚCI*

Abstrakt. Wprowadzenie: Wrodzona łamliwość kości (*osteogenesis imperfecta* – OI) jest rzadką chorobą kości. Etiologia jej obejmuje defekt genów odpowiedzialnych za produkcję kolagenu typu I lub mutacji genów białek zaangażowanych w jego potranslacyjną obróbkę. Pacjenci doświadczają nawracających złamań kości długich i kręgow oraz trudności funkcjonalnych innych narządów.

Cel: Ocena postaw rodziców wobec pacjentów pediatrycznych z rozpoznaniem OI.

Materiał i metody: Przebadano 102 osoby (51 rodziców pacjentów z wrodzoną łamliwością kości oraz 51 opiekunów dzieci z rozpoznaniem nieprawidłowości gospodarki wapniowo-fosforanowej). Zastosowano Skalę Postaw Rodzicielskich M. Plopy oraz autorską ankietę socjometryczną.

Wyniki: Wykazano brak istotnych statystycznie różnic w ocenie nasilenia postaw rodziców wobec dzieci z OI (wrodzoną łamliwością kości) oraz z NG Ca-P (nieprawidłowościami gospodarki wapniowo-fosforanowej). Opiekunów charakteryzuje wysoki poziom akceptacji, przeciętne nasilenie wymagań, autonomii i ochrony oraz mała niekonsekwencja wobec chorych dzieci.

Wnioski: Rodzice dzieci z OI mają potencjał tworzenia dobrych warunków do rozwoju swoich chorych dzieci, a pozytywne postawy są korzystnym czynnikiem sprzyjającym prawidłowej adaptacji dzieci do życia.

Słowa kluczowe: postawy rodzicielskie, wrodzona łamliwość kości, dzieci przewlekłe chore, niepełnosprawność

* Praca realizowana w ramach badań własnych nr 502-03/1-090-02/502-14-351-18. Opublikowane wyniki badań stanowią dostosowany do wytycznych redakcyjnych fragment dysertacji doktorskiej obronionej przez autorkę w 2021 r. na Uniwersytecie Medycznym w Łodzi.

PARENTS' ATTITUDES TOWARDS CHILDREN WITH OSTEOGENESIS IMPERFECTA

Abstract. Introduction: Osteogenesis imperfecta (OI) is a rare, disease of bone. Its etiology includes the occurrence a defect in the genes that produce type I collagen or mutations in the genes of proteins involved in its post-translational processing. Patients experience recurrent fractures in long bones and vertebrae as well as functional difficulties of other systems and organs.

Aim: Assessment of parents' attitudes towards pediatric patients diagnosed with OI.

Material and methods: 102 people 51 parents of patients with OI and 51 caregivers of children with calcium-phosphate abnormalities were examined. The Parental Attitude Scale by M. Plopa and the proprietary sociometric survey were used.

Results: There were no statistically significant differences in the assessment of the severity of parents' attitudes towards children with OI (osteogenesis imperfecta) and Ca-P A (calcium-phosphate abnormalities). The guardians are characterized by a high level of acceptance, average level of requirements, autonomy and protection, and low inconsistency towards sick children.

Conclusions: Parents of children with OI have the potential to create good conditions for the development of their sick children and positive attitudes are beneficial factors contributing proper adaptation of their children to life.

Keywords: parental attitudes, osteogenesis imperfecta, chronically ill children, disability

WPROWADZENIE

Rodzina jest pierwszym i zdaniem wielu badaczy podstawowym środowiskiem życia dzieci i młodzieży. Pomimo zauważalnych zmian – opisanych przez Kwak (2005), Ładyżewskiego (2011) oraz Malinę i Suwalską-Barancewicz (2017) – które zachodzą w tej podstawowej komórce społecznej na przestrzeni wieków, sens jej trwania rzadko kiedy bywa podważany ze względu na zdolność do sprawowania ważnych funkcji zapewniających biologiczne przetrwanie i opiekę najmłodszym członkom społeczeństwa (Tyszka, 1993; Ziemska, 1977). W tym kontekście słuszne wydaje się przewidywanie Rembowskiego (1980, s. 127), który twierdzi, że ta najmniejsza grupa społeczna „była zawsze, jest z nami i będzie tak długo, jak długo istniał będzie człowiek”. Siła oddziaływania rodziny na najmłodsze pokolenie jest najczęściej połączona z trwałością generowanych przez jej członków więzi i zależności. Papierkiem lakmusowym tych wzajemnych powiązań są przyjmowane przez osoby ją budujące postawy wobec innych (Bereza, Szymczak, 2016; Plopa, 2008; Powell i in., 2015).

Termin „postawa” w literaturze psychologicznej jest definiowany wielorako. Rozumienie pojęcia wprowadzonego przez Spencera i Baina (za: Wojciszke, 2003) bardzo odbiega od pierwotnego sposobu definiowania, na gruncie którego termin był rozumiany jako stopień dopasowania przy angażowaniu się w wykonywanie zadania (Reber, Reber, 2000). Aktualnie wzorem Miki (1981, s. 116): „Przez postawę rozumie się względnie stałą strukturę procesów poznawczych, emocjonalnych

i tendencji do zachowań, w której wyraża się określony stosunek wobec danego przedmiotu”. Takie trójelementowe ujęcie uwzględniające komponentę emocjonalną, poznawczą i behawioralną jest przyjmowane przez badaczy zagadnienia postaw najczęściej (por. Reber, Reber, 2000; Wojciszke, 2003), przy czym wielu autorów za dominujący element postaw uważa ich składową emocjonalną (Marody, 1978; Plopa, 2008). W przypadku gdy postawa jest ukierunkowana na dziecko możemy mówić o specyficznym jej typie – „postawie rodzicielskiej”. Warto zatem za Ziemiaką (2009) przyjąć, że postawa rodzica względem dziecka jest poznawczo-dążeniowo-afektywną strukturą wyznaczającą sposób zachowania opiekuna wobec dziecka. Aspekt behawioralny wydaje się szczególnie ważny w kontekście bezpośrednio obserwowalnych skutków wpływu na dziecko. Na problem ten zwraca uwagę m.in. Braun-Gałkowska (1991), podkreślając możliwość występowania rozbieżności pomiędzy składowymi „postawy rodzicielskiej”, która w skrajnych przypadkach może skutkować ich pozorną adaptacyjnością – kiedy rodzic, z różnych względów, np. społecznych, deklaruje pozytywne podejście do podopiecznego (komponenta poznawcza), które pozostaje w sprzeczności z jego faktycznym zachowaniem (komponenta behawioralna).

Niezależnie od stopnia spójności postawa wobec dziecka, jak twierdzi Rembowski (1972), jako całościowe ustosunkowanie matki i ojca do niego powstaje w toku pełnienia funkcji rodzicielskich. Dlatego niektórzy badacze za Bielawską-Batorowicz (1995, s. 26) przyznają, że postawy pomiędzy członkami rodziny mają charakter wzajemny i zwrotny, tzn. należy je rozumieć relacyjnie. Oznacza to, iż rodzice wpływają na dzieci w stopniu, w jakim dzieci wpływają na opiekunów, mimo że wpływ rodzica wydaje się pierwotny, co jest powiązane zarówno ze stopniem zależności, zwłaszcza małych dzieci od osób starszych, jak i z możliwością budowania ustosunkowania do potomka na etapie życia płodowego i w pierwszych miesiącach po porodzie (por. Bielawska-Batorowicz, 1995; Bowlby, 2007; Pisula, 1998). Podejście takie od lat jest postulowane przez przedstawicieli wszystkich głównych paradygmatów psychologicznych (por. Cierpiąłkowska, 2020; Chrzan-Dętkoś, Gracka-Tomaszewska, 2006; Powell i in., 2015), a aktualnie dodatkowo wspierane przez możliwość obrazowania życia płodowego dziecka i jego interakcji z opiekunami w tym okresie (Pawelczak, Buchnat, 2013; Wojaczek, 2014).

Zagadnienia powyższe szczególnej wagi nabierają w odniesieniu do osób z rozpoznanymi odchyleniami od normy z uwagi na stan zdrowia. Liczni autorzy podkreślają znaczenie nietypowych, wysoce stresogennych warunków, w których opiekunowie tych dzieci podejmują się sprawowania funkcji opiekuńczej (Berant i in., 2008; Dyches i in. 2012; Findler i in., 2016). W takich przypadkach szczególnie silnie są uruchamiane porównania nowo narodzonego dziecka z obrazem „idealnym” lub „przeciętnym”, które u wszystkich opiekunów dzieci (nie tylko dzieci chorych) mają znaczenie dla sposobu traktowania dziecka, który jest oparty

na uwewnętrznionych przekonaniach dotyczących sposobu realizacji roli rodzicielskiej (Bielawska-Batorowicz, 1995).

Zarówno nienormatywne warunki wchodzenia w rolę opiekuna chorego dziecka, jak i cechy indywidualne matki i ojca, a także właściwości chorego dziecka oraz specyfika jego trudności zdrowotnych decydują o tym, w jakim stopniu rodziny te znajdują zasoby do generowania postaw, nie tylko wspierających rozwój, lecz także mających zdolność do niwelowania lub kompensacji trudności rozwojowych. Z tego względu wielu autorów pisze w kontekście dzieci chorych o „innym rodzicielstwie” lub „rodzicielstwie w kryzysie” (Sowa, Włodarczyk, 2017; Stelter, 2012), porównując problemy adaptacyjne rodziców do procesu „mentalnej żałoby” po stracie wyobrażeń zdrowego potomka, które bez wyjątku tworzą opiekunowie przed przyjściem dziecka na świat (Chiasson, 2004; Urmańska, 2007).

Wraz z upływem czasu większość rodziców, jak pisze Stelter (2011), w mniejszym lub większym stopniu godzi się z odmiennością stanu zdrowia dziecka, a co za tym idzie, wypracowuje mniej lub bardziej adaptacyjne sposoby funkcjonowania dostosowanego do odrębności w zakresie sposobu przeżywania, przebiegu procesów emocjonalnych i zachowania dzieci chorych. Trzeba bowiem za Pisulą (2003, s. 11) podkreślić, że „dzieci z zaburzeniami rozwoju są innymi – w pewnym stopniu bardziej wymagającymi – partnerami podczas interakcji niż ich zdrowi rówieśnicy”. Z tego powodu w większym stopniu są narażone na mniej korzystne ustosunkowanie rodziców, zwłaszcza tych, którzy nie potrafią takim wyzwaniom sprostać (Liberska, Matuszewska, 2011; Malina, 2011; Szczepaniak, 2000).

Problemem negatywnych postaw wobec dzieci z zaburzeniami rozwoju zajmowała się m.in. Kościelska (1995), która wyróżniła trzy najczęstsze typy niekorzystnego ustosunkowania do córek i synów. Autorka opisała także ich podstawowe następstwa dla rozwoju dziecka:

1) postawy lękowo-ochronne – rodzice nie pozwalając na samodzielność i podejmowanie działań, blokują rozwój poznawczy, prowadząc do bierności i braku inicjatywy;

2) postawy bezwzględne – rodzice są nastawieni wyłącznie na pielęgnację i rehabilitację oraz ciągłe wizyty u specjalistów w celu likwidacji zaburzeń. Skutkuje to częstym protestem i wdrażaniem strategii unikania tych działań zarówno przez dziecko, jak i opiekuna;

3) postawa obojętności na potrzeby dziecka – rodzice okazują brak serdeczności i empatii, który skutkuje deficytem poczucia bezpieczeństwa oraz wysokim poziomem lęku kompensowanego zachowaniami autostymulacyjnymi.

Wielu innych autorów podkreśla możliwość wpływu niedostosowanych do możliwości dziecka postaw opiekunów na niekorzystny rozwój poznawczy i intelektualny (np. osiągnięcia szkolne), kształtowanie dojrzałości uczuciowej i społecznej, a także formułowanie obrazu siebie przez chorego (Bochniarz, 2010; Forma, 2013; Juroszek, 2018; Lewandowska-Kidoń, Korzeniowska-Kozerska, 2015; Rembowski, 1972; Ziemska, 2009). Za szczególnie niekorzystne, a częste,

uznaje się oscylowanie pomiędzy skrajną nadopiekuńczością a odrzuceniem (Kulik, Otrębski, 2012), co więcej ta pierwsza postawa, rzadko piętnowana społecznie, zdaniem Kościelskiej (1995) może uchodzić za tzw. zamaskowane odrzucenie bazujące na litości i współczuciu lub chęci ucieczki opiekuna od problemów. Na jej doświadczanie są narażone szczególnie dzieci ze sprzężoną niepełnosprawnością somatyczną, która „wymaga większego zaangażowania i trudu w opiece (...) niż u dzieci tylko z zewnętrzną dysmorfia rozwojową” (Sadowska i in., 2010 s. 173).

W grupie podwyższonego ryzyka znajdują się osoby z tzw. chorobami rzadkimi, do których jest zaliczana także wrodzona łamliwość kości (OI). To nieuleczalne i przewlekłe zaburzenie, którego geneza wiąże się z defektem metabolicznym polegającym na mutacji genów COL1A1 i/lub COL1A2 powiązanych z tworzeniem kolagenu typu I, a także genami sterującymi jego potranslacyjną obróbką. Dominującym objawem choroby są niskoenergetyczne, samoistne nawracające złamania głównie kości długich i kręgow, których pacjenci, zwłaszcza z najcięższym przebiegiem zaburzenia (typ II i III), mogą doświadczać już w życiu płodowym. Efektem nieprawidłowości produkcji białka, budującego także m.in. ścięgna, naczynia krwionośne i skórę, są trudności funkcjonowania innych – poza szkieletowym – układów, takich jak: sercowo-naczyniowy, oddechowy, pokarmowy i endokryny (van Dijk, Sillence, 2014; Marr i in., 2017). Te odstępstwa od normy w obrębie stanu zdrowia przekładają się na codzienne trudności pacjentów w zakresie funkcjonowania i podejmowania właściwych ról społecznych (Hill i in., 2014; Fano i in., 2013; Reite i in., 1972; Song i in., 2019; Tsimicalis i in., 2016). W dużym stopniu wyznaczają także jakość życia opiekunów dzieci chorych (por. Albińska i in., 2018; Dahan-Oliel i in., 2016; Dogba i in., 2013; Szczepaniak-Kubat i in., 2012; Vanz i in., 2015). Funkcjonowanie rodziców dzieci z rozpoznaniem OI jest słabo zbadane prawdopodobnie ze względu na ograniczone rozpowszechnienie choroby w populacji. W odniesieniu do rodziców dzieci z OI na aktualności nie traci założenie Bartnikowskiej i Ćwirynkało (2013), które zauważają, że pomimo ogólnie uznawanego postulatu dotyczącego istotnego wpływu rodziny na osiągnięcia chorych dzieci nadal niewiele wiadomo o tym, jak kształtuje się ustosunkowanie rodziców do dzieci oraz w jakim stopniu sprzyjać może rozwojowi tych dzieci.

CEL PRACY

Celem artykułu jest ocena nasilenia postaw rodziców względem pacjentów pediatrycznych z rozpoznaniem wrodzonej łamliwości kości. Uwzględniono perspektywę rodziców dzieci i nastolatków. Podczas analiz poszukiwano także pośrednio odpowiedzi na pytanie o potencjalną wartość poznawczo-emocjonalno-behawioralnego ustosunkowania rodziców wobec chorych na OI dzieci dla kształtowania środowiska wychowawczego sprzyjającego rozwojowi.

MATERIAŁ I METODY

Badaniami objęto 102 pary: rodzic-dziecko (po 51 par w grupie badanej i porównawczej). Grupa badana to rodzic-opiekun i dziecko z wrodzoną łamliwością kości (OI), natomiast grupa porównawcza to rodzice i dzieci z nieprawidłowościami gospodarki wapniowo-fosforanowej (NG Ca-P). Prezentowane wyniki są fragmentem pracy doktorskiej *Ocena poczucia jakości życia zależnej od stanu zdrowia dzieci i młodzieży z rozpoznaną wrodzoną łamliwością kości* realizowanej przez psychologa Paulinę Albińską. Wstępną rekrutację przeprowadzono w oparciu o retrospektywną analizę dokumentacji medycznej, gdyż dzieci z obydwu grup były pacjentami Kliniki Propedeutyki Pediatrii i Chorób Metabolicznych Kości UM w Łodzi w latach 2010–2018.

Rodzice zostali zakwalifikowani do badania w drodze probabilistycznego doboru celowego; towarzyszyli dziecku podczas hospitalizacji, sprawując funkcję opiekuńczą. Dobór osób do grupy porównawczej przeprowadzono w oparciu o nasilenie oraz sprzężenie dolegliwości klinicznych dzieci, które, jak donosi literatura, może różnicująco wpływać na ustosunkowanie opiekuna do dziecka prezentującego odbiegający od normy stan zdrowia (Bernat i in., 2008; Howe, 2006; Piśula, 2003; Sadowska i in., 2010; Stawicka, 2008). Do grupy porównawczej włączono zatem opiekunów mających świadomość nieprawidłowości zdrowotnych występujących u dziecka, ale o łagodnym przebiegu relatywnie łatwym do zniwelowania przy zastosowaniu suplementacji lub aktywności rehabilitacyjnej. Podopieczni rodziców z grupy porównawczej podlegali pierwszej hospitalizacji, której podstawą były wykryte podczas badań ambulatoryjnych i przedmiotowych nieprawidłowości typu wady postawy, wady kończyn dolnych oraz niedobór witaminy D. Rozpoznane u tych dzieci odstępstwa zdrowotne zostały ostatecznie zakwalifikowane jako nieprawidłowości gospodarki wapniowo-fosforanowej. Pomiędzy grupami dzieci będących pod opieką badanych matek i ojców istniały odmienności w nasileniu prezentowanych objawów. Szczegółową charakterystykę tych dzieci przedstawiono w tabeli 1.

Tabela 1. Podział dzieci osób badanych według typu choroby i płci

Typ choroby dziecka		Dziewczynki		Chłopcy		Osoby badane ogółem	
		N = 43	%	N = 59	%	N = 102	%
Wrodzona łamliwość kości (OI)	OI typ 1	15	34,9	22	37,3	37	36,3
	OI typ 2	0	0	0	0	0	0
<i>Osteogenesis imperfecta</i> (OI)	OI typ 3	7	16,3	5	8,5	12	11,8
	OI typ 4	1	2,3	1	1,7	2	2,0

Nieprawidłowości gospodarki wapniowo-fosforanowej (NG Ca-P) <i>Calcium-phosphate abnormalities</i> (Ca-P A)	Niedobór witaminy D	15	34,9	24	40,7	39	38,2
	Niedobór Ca lub P	5	11,6	11,9	12	12	11,8

Źródło: opracowanie własne.

Osoby badane były opiekunami 43 dziewczynek i 59 chłopców. Dzieci rodziców włączonych do grupy badanej najczęściej prezentowały I lub IV typ choroby – o relatywnie łagodniejszym przebiegu. Dwanaście osób sprawowało opiekę nad dzieckiem z rozpoznaniem typu postępująco-deformującego (oznaczanego numerycznie jako typ III). Szczegółową charakterystykę socjodemograficzną dzieci osób badanych z grupy badanej i porównawczej zaprezentowano w oparciu o rozkład procentowy w tabeli 2.

Tabela 2. Dane demograficzne dzieci pozostających pod opieką osób badanych

Zmienna demograficzna	OI (<i>Osteogenesis imperfecta</i>)		NG Ca-P		Osoby badane ogółem	
	N = 51	%	N = 51	%	N = 102	%
Płeć						
Dziewczynki	23	45,1	20	39,2	43	42,2
Chłopcy	28	54,9	31	60,8	59	57,8
Wiek						
8–11 lat	29	56,9	23	45,1	52	51
12–18 lat	22	43,1	28	54,9	50	49
Czas od ustalenia diagnozy						
Przed urodzeniem	21	41,2	0	0	21	20,6
1–7 rok	25	49,1	13	25,5	38	37,2
8–11 rok	2	3,9	19	37,3	21	20,6
12–18 rok	3	5,9	19	37,3	22	21,6
Złamania prenatalne						
Brak	34	66,7	50	98,0	84	82,4
Wystąpiły	17	33,3	1	2,0	18	17,6
Dotychczasowe złamania						
Brak	0	0	30	58,8	30	29,4
1–10	38	74,6	20	39,2	59	57,8
11–20	6	11,8	0	0	6	5,8
21–30	2	3,9	0	0	2	2,0
31–40	2	3,9	0	0	2	2,0

Tabela 2 (cd.)

Zmienna demograficzna	OI (<i>Osteogenesis imperfecta</i>)		NG Ca-P		Osoby badane ogółem	
	N = 51	%	N = 51	%	N = 102	%
41–45	1	2,0	0	0	1	1,0
Powyżej 45	2	3,9	0	0	2	2,0
Przeciętne nasilenie bólu						
Niskie 0–4	25	49,0	42	82,3	67	65,8
Przeciętne 5–6	10	19,6	6	11,7	16	15,7
Wysokie 7–10	16	31,4	3	5,9	19	18,6
Codzienne trudności funkcjonalne						
Brak	23	45,1	45	88,2	68	66,7
Występują	28	54,9	6	11,8	34	33,3

Źródło: opracowanie własne.

Większość rodziców była opiekunami chłopców (59 osób – 57,8%), wśród których 28 (54,9%) chorowało na OI, a u 31 (60,8%) rozpoznano NG Ca-P. Jeśli uwzględnimy wiek dzieci, to nieco ponad połowa (52 osoby – 51%) była w wieku szkolnym (8–11 lat), a pozostałe – (50 osób – 49%) znajdowała się w okresie adolescencji (12–18 lat). Większości (38 osobom, tzn. 37,2%) postawiono diagnozę między 1 a 7 rokiem życia, przy czym w przypadku pacjentów z OI często ustalano ją także w okresie prenatalnym (21 osób – 41,2 %). Natomiast osoby z NG Ca-P często były diagnozowane po 8 roku życia (po 19 osób; 37,3% między 8–11 oraz między 12–18 rokiem życia). Dzieci, nad którymi opiekę sprawowali badani respondenci, różniły się nasileniem doświadczanych objawów, tj. złamań, które przeżyły wszystkie dzieci z OI oraz dwadzieścioro dzieci z NG Ca-P (39,2%). Liczba złamań u większości dzieci nie przekraczała 10, jednak wśród osób z OI znajdowały się takie, które miały ich od 10 do 45 (13 osób; 25,5%). Dzieci rodziców z porównywanych grup różniły się także występowaniem i nasileniem dolegliwości bólowych oraz trudności funkcjonalnych: 42 osoby z rozpoznaniem NG Ca-P (82,3%) oraz 25 osób z OI doświadczało bólu o niskim nasileniu, natomiast 16 osób z OI (31,4%) oraz zaledwie 3 osoby z NG Ca-P (5,9%) doświadczały silnego bólu. Rodzice w większym stopniu byli motywowani także do podejmowania działań pomocowych wobec dzieci z OI, ponieważ 28 osób (54%) spośród nich miało codzienne trudności funkcjonalne. Podobny problem dotyczył tylko sześciorga rodziców opiekujących się dzieckiem z NG Ca-P.

Kryteriami wyłączenia rodzica z badania był brak zgody na udział w nim albo występujący u syna lub córki nieprawidłowy rozwój intelektualny, zmiany organiczne w OUN, nadużywanie przez dziecko substancji psychoaktywnych oraz współwystępowanie innych chorób przewlekłych (w tym całościowych zaburzeń

rozwoju). Osoba biorąca udział w projekcie badawczym wyraziła pisemną zgodę na uczestnictwo w nim i każdorazowo był to rodzic, który podczas aktualnej hospitalizacji dziecka podjął się roli osoby sprawującej nad dzieckiem opiekę. Różnice w zakresie odmienności charakterystyki indywidualnej i rodzinnej pomiędzy opiekunami dzieci z OI oraz z NG Ca-P zaprezentowano w tabeli 3.

Tabela 3. Dane demograficzne opiekunów dzieci z wrodzoną łamliwością kości

Zmienna demograficzna	Rodzic dziecka z OI		Rodzic dziecka z NG Ca-P		Osoby badane ogółem	
	N = 51	%	N = 51	%	N = 102	%
1	2	3	4	5	6	7
Struktura rodziny						
Pełna	38	74,5	43	84,3	81	79,4
Zrekonstruowana	13	25,5	8	15,8	21	20,6
Badany opiekun						
Matka	42	82,4	43	84,3	85	83,3
Ojciec	8	15,7	8	15,7	16	15,7
Babcia	1	4,0	0	0	0	0
Status materialny rodziny – ocena rodzica						
Zły 1–4	0	0	0	0	0	0
Przeciętny 5–6	26	51,0	22	43,1	48	47,1
Dobry 7–10	25	49,0	29	56,9	54	52,9
Sytuacja mieszkaniowa rodziny – ocena rodzica						
Zła 1–4	0	0	0	0	0	0
Przeciętna 5–6	14	27,5	13	25,5	27	26,5
Dobra 7–10	37	72,5	38	74,5	75	73,5
Miejsce zamieszkania						
Wieś	20	39,2	18	35,3	38	37,3
Miasto	31	60,8	33	64,7	64	62,7
Wiek matki lub babci – jedno dziecko z OI						
Nie dotyczy (matka zmarła lub nie ma z nią kontaktu)	1	2,0	0	0	0	0
Do 20	0	0	0	0	1	1,0
21–30	1	2,0	0	0	1	1,0
31–40	23	45,1	23	45,1	46	45,1
41–50	24	47,1	25	49,0	49	48,0
51–60	2	3,9	3	5,9	5	4,9

Tabela 3 (cd.)

Zmienna demograficzna	Rodzic dziecka z OI		Rodzic dziecka z NG Ca-P		Osoby badane ogółem	
	N = 51	%	N = 51	%	N = 102	%
Wiek ojca						
Nie dotyczy (ojciec zmarł lub nie ma z nim kontaktu)	0	0	1	2,0	1	1,0
Do 20	0	0	0	0	0	0
21–30	20	39,2	22	43,1	45	44,1
31–40	25	49,0	20	39,2	45	44,1
41–50	5	9,8	8	15,7	13	12,7
51–60	1	2,0	0	0	1	1,0
Wykształcenie matki lub babci – jedna osoba z OI						
Podstawowe	3	5,9	1	2,0	4	3,9
Zawodowe	9	17,6	8	15,7	17	16,7
Średnie	20	39,2	22	43,1	42	41,2
Wyższe	19	37,3	20	39,2	39	38,2
Wykształcenie ojca						
Podstawowe	3	5,9	2	3,9	5	4,9
Zawodowe	17	33,3	11	21,6	28	27,5
Średnie	20	39,2	25	49,0	45	44,1
Wyższe	11	2,6	13	25,5	24	23,5
Sytuacja zawodowa matki lub babci – jedna osoba z OI						
Nie dotyczy (rodzic zmarł lub nie ma z nim kontaktu)	2	3,9	0	0	2	2,0
Bezrobotna	2	3,9	9	17,6	11	10,8
Na rencie	4	7,8	1	2,0	5	4,9
Rezygnacja z pracy na rzecz stałej opieki nad dzieckiem	20	39,2	0	0	20	19,6
Chwilowo na urlopie wychowawczym	2	3,9	0	0	2	2,0
Zatrudniona	21	41,2	41	80,4	62	60,8
Sytuacja zawodowa ojca						
Nie dotyczy (rodzic zmarł lub nie ma z nim kontaktu)	0	0	1	2,0	1	1,0
Bezrobotny	3	5,9	1	2,0	4	3,9

Na rencie	2	3,9	3	5,9	5	4,9
Rezygnacja z pracy na rzecz stałej opieki nad dzieckiem	1	2,0	0	0	1	1,0
Chwilowo na urlopie wychowawczym	0	0	0	0	0	0
Zatrudniony	45	88,2	46	90,2	91	89,2

Źródło: opracowanie własne.

Większość badanych stanowiły matki (85 osób – 83,3%); do analiz w przypadku jednego dziecka z OI włączono babcię, która była jedynym opiekunem prawnym dziecka. Osiedziesiąt jeden osób (79,4%) spośród badanych tworzyło rodziny pełne, przy czym w przypadku 74,5% rodzin zamieszkiwało w nich dziecko z rozpoznaniem OI; w rodzinach pełnych zamieszkiwało także 84,3% dzieci z NG Ca-P. Dominowali rodzice mieszkający z chorym dzieckiem w mieście – 31 opiekunów dzieci z OI (60,8%) oraz 33 osoby sprawujące opiekę nad dzieckiem z NG Ca-P (64,7%). Żadna z badanych osób nie określiła statusu materialnego rodziny lub jej warunków mieszkaniowych jako złych. Większość matek w badanych rodzinach miała między 41 a 50 lat, wiek ojca plasował się zazwyczaj w przedziale 21–41 lat. Badani rodzice z obydwu grup, bez względu na płeć (matki i ojcowie) podawali wykształcenie średnie (42 matki; 41,2% rodzin osób badanych oraz 45 ojców; 44,1% rodzin osób badanych). Większość spośród opiekunów dzieci badanych w momencie prowadzenia analiz podejmowała obowiązki zawodowe. Aktywność taką realizowało 21 matek oraz 45 ojców osób z OI (odpowiednio 41,2% oraz 88,2%), a także 41 matek oraz 46 ojców dzieci z NG Ca-P (odpowiednio 80,4% oraz 90,2%); 20 matek dzieci z OI (39,2%) rezygnowało z zatrudnienia na rzecz stałej opieki nad chorym dzieckiem, natomiast przed wyborem takim nie stawała żadna z matek opiekujących się dzieckiem, u którego rozpoznano NG Ca-P.

Przed przystąpieniem do realizacji prezentowanego projektu pozyskano zgodę Komisji Bioetycznej Uniwersytetu Medycznego w Łodzi (Nr RNN/37/16/KE z 16 lutego 2016 r.). Dane wykorzystane do analiz zostały zebrane i opracowane statystycznie przez psychologa. Wszyscy opiekunowie prawni dzieci zostali poinformowani o celu prowadzonych badań oraz dobrowolności uczestnictwa w nich oraz wyrazili na nie pisemną zgodę. Materiał pozyskany do analiz empirycznych zgromadzono przy wykorzystaniu następujących narzędzi oceny psychologicznej:

- kwestionariusz oceny stanu psychospołecznego dzieci i młodzieży w wieku 8–18 lat, opracowanie Paulina Albińska. Jest to autorskie narzędzie stworzone na potrzeby prezentowanych badań. Uwzględniono w nim obiektywne wskaźniki

funkcjonowania opiekuna. Narzędzie zawiera zarówno zmienne ilościowe, jak i jakościowe;

- Skala Postaw Rodzicielskich [SPR] Plopa (2008). Służy do analizy postaw rodzicielskich ocenianych jako profil tworzony z pięciu postaw o różnym nasileniu (akceptacja-odrzućenie, nadmierne wymagania, autonomia, niekonsekwencja, nadmierne ochranianie). Jej zastosowanie pozwala na rozpoznanie emocjonalno-poznawczo-behawioralnego ustosunkowania wobec dziecka. Narzędzie opracowano w dwóch analogicznych wersjach, odrębnie dla matki i ojca.

Arkusze badawczy zawiera pięćdziesiąt twierdzeń tworzących pięć podskal. Wartości odpowiedzi plasują się na pięciostopniowej skali Likerta, a badany udziela odpowiedzi poprzez wybór jednej z opcji. Kwestionariusz charakteryzuje się dobrymi wskaźnikami zgodności wewnętrznej dla obu płci rodzica. Dowiedzono także jego teoretycznej trafności (dowody przemawiające za trafnością kryterialną). Narzędzie posiada normy stenowe opracowane odrębnie dla płci, wieku, wykształcenia oraz liczby i wieku dzieci w rodzinie (Plopa, 2008).

Do obliczeń statystycznych zastosowano pakiet SPSS IBM Statistic 25. Jako zmienną różnicującą przyjęto typ objawów (OI lub NG Ca-P) prezentowanych przez dziecko pozostające pod opieką osób z grupy badanej i porównawczej. Ze względu na duże zróżnicowanie wieku osób (8–18 lat) objętych analizą do porównań odmienności średnich poziomów postaw rodzicielskich użyto modelu ANCOVA (wiek dziecka jako zmienna zakłócająca). Podczas analiz odstąpiono od testowania normalności rozkładu zmiennych, bazując na wytycznej Szymczaka (2018) w oparciu o sugestie Brocka (1975), pozwalającej w przypadku próbek o równej liczebności, przekraczającej pięćdziesiąt obserwacji, na testowanie jednorodności wariancji z użyciem testu Fmax Hartleya wraz z poprawką Zimmermana.

WYNIKI

Przeprowadzona analiza danych była ukierunkowana na poznanie stopnia nasilenia poszczególnych postaw rodzicielskich przejawianych przez opiekunów względem dzieci z wrodzoną łamliwością kości oraz z rozpoznanymi nieprawidłowościami gospodarki wapniowo-fosforanowej. Zgodnie z profilowym układem kwestionariusza wyniki obliczono odrębnie dla każdej ze skal. Takie postępowanie badawcze pozwoliło na niezależne rozpatrzenie występowania nasilenia wymiaru akceptacji-odrzućenia oraz nadmiernych wymagań, autonomii, niekonsekwencji, a także nadmiernej ochrony. Uzyskane wyniki zaprezentowano poniżej (tabela 4).

Tabela 4. Porównanie średniego poziomu postaw rodzicielskich wobec dzieci z wrodzoną łamliwością kości oraz dzieci z nieprawidłowościami gospodarki wapniowo-fosforanowej

Postawa rodzica	Rodzaj choroby	Średnie skorygowane o wiek	Błąd standardowy	p w teście porównywania średnich
Akceptacja-odrzućenie	Rodzice dzieci z OI	45,38	0,597	0,910
	Rodzice dzieci z NG Ca-P	45,28	0,597	
Wymagająca	Rodzice dzieci z OI	27,31	1,027	0,211
	Rodzice dzieci z NG Ca-P	29,15	1,027	
Autonomia	Rodzice dzieci z OI	38,45	0,738	0,174
	Rodzice dzieci z NG Ca-P	37,01	0,738	
Niekonsekwentna	Rodzice dzieci z OI	21,70	1,077	0,734
	Rodzice dzieci z NG Ca-P	21,18	1,077	
Ochroniająca	Rodzice dzieci z OI	31,83	1,080	0,109
	Rodzice dzieci z NG Ca-P	29,35	1,080	

Źródło: opracowanie własne.

Uzyskane dane nie pozwalają na wnioskowanie o istnieniu różnic istotnych statystycznie pomiędzy badanymi grupami. Spostrzeżenie to odnosi się do wszystkich analizowanych w projekcie badawczym postaw rodziców. Oznacza to, że rodzice dzieci i młodzieży z OI nie odbiegają od opiekunów osób z rozpoznaniem NG Ca-P pod względem stopnia akceptacji, wymagań, autonomii, konsekwencji i ochrony dziecka. Zaprezentowane w niniejszym doniesieniu wyniki pozwalają wnioskować o adaptacyjnych postawach przejawianych przez rodziców względem dzieci z OI. Jeśli bowiem uzyskane rezultaty odniesiemy do norm populacyjnych, to pośrednio możemy wnosić, że stopień akceptacji badanych dzieci z OI przez rodziców jest wysoki. Dane wskazują także, że opiekunowie w wyważonym stopniu stawiają chorym na OI dzieciom wymagania, pozwalają na umiarkowaną autonomię oraz w przeciętnym stopniu ochraniają swoje chore dzieci. Ważne wydaje się spostrzeżenie, że rodzice prezentują przy tym niski poziom niekonsekwencji, co wydaje się szczególnie korzystne ze względu na większą przewidywalność zachowania opiekuna. Sprzyja to budowaniu poczucia bezpieczeństwa dziecka w środowisku rodzinnym (Bowlby, 2007; Jankowiuk-Diallo, 2006; Kulik, Otrębski, 2012; Powell i in., 2015).

Prawidłowość ta dotyczy także dzieci z zaburzeniami funkcjonowania narządu ruchu, co potwierdzają wypowiedzi dorosłych pacjentów z OI na temat własnych doświadczeń z dzieciństwa (Ablon, 2010; Stahlecker, Cohen, 1985).

PODSUMOWANIE

Problematyka psychologicznego funkcjonowania rodzin i dzieci z wrodzoną łamliwością kości jest rzadko prezentowana w piśmiennictwie (por. Dahan-Oliel i in., 2016; Dung i in., 2013; Hill i in., 2019; Marr i in., 2017). Uzyskane dane są szczególnie wartościowe w kontekście deficytu informacji dotyczących sposobu funkcjonowania i postaw rodziców w odniesieniu do dzieci, u których rozpoznano tzw. choroby rzadkie o podłożu genetycznym (por. Cohen, Biesecker, 2010; Krzywdzińska i in., 2015; Kulik, Otrębski, 2012; Kulisiak-Kazimierczak, 2010). Zaprezentowane wyniki badań wydają się optymistyczne. Przeczą one danym przedstawianym w piśmiennictwie, wskazującym na możliwość występowania postaw rodzicielskich niesprzyjających rozwojowi przewlekle chorych i niepełnosprawnych dzieci z odmienną niż OI chorobą. W takim przypadku wielu autorów, co ukazano we wprowadzeniu, wskazuje na ambiwalencję postaw rodziców, szczególnie w postaci oscylowania pomiędzy akceptacją a odrzuceniem dziecka oraz pomiędzy przyzwalaniem na samodzielność a ochroną (Ćwirynkało i in., 2015; Forma, 2013; Kulik, Otrębski, 2012; Rembowski, 1972; Szczepaniak, 2000; Wiliński, 2009). Dane takie odnoszą się także do nielicznych publikacji dotyczących funkcjonowania rodzin dzieci z wrodzoną łamliwością kości (Ablon, 2010; Hill i in., 2014; Mandache, Macovei, 2014; Monti i in., 2010). Inni badacze zwracają uwagę na nierzadko występującą chwiejność ustosunkowania emocjonalno-poznawczo-behawioralnego do dziecka prezentującego odstępstwa od normy w zakresie stanu zdrowia lub też akcentują kłopoty z wypracowaniem spójnego frontu wychowawczego pomiędzy opiekunami (Plopa, 2008; Rembowski, 1972; Rostowska, 2008).

Przedstawione wyniki tylko pozornie wydają się sprzeczne z tymi danymi. Najnowsze analizy dotyczące ustosunkowania opiekunów do dzieci chorych wskazują na modyfikujący charakter choroby, sugerujący obniżanie wymagań rodzicielskich względem dzieci prezentujących cięższe nasilenie objawów. W rezultacie tych procesów opiekunowie bardziej przychylnie ustosunkowują się do dzieci, co stanowi ważny zasób rodziny pod względem możliwości kształtowania sprzyjających rozwojowi dziecka warunków wychowawczych. Rezultaty prezentowanych analiz są zgodne z wynikami jedynej znanego autorce badania dotyczącego postaw rodzicielskich prezentowanych przez opiekunów dzieci chorych na OI. Suskauer i in. (2003) również nie wykazali różnic w postawach rodziców dzieci z OI

i tych należących do grupy porównawczej. Warto jednak zaznaczyć, że w analizie tych autorów uwzględniono jedynie postawę nadopiekuńczości.

Przy tej okazji należy zwrócić uwagę także na niedoskonałości prezentowanych w tym artykule badań celem ich ewentualnego zniwelowania podczas dalszej eksploracji poruszanej problematyki. Zostały one wypunktowane poniżej:

- w większości przypadków osobą badaną była matka chorego dziecka. Ograniczenie to, podyktowane trudnościami organizacyjnymi w dostępie do drugiego opiekuna (grupa badana i porównawcza rekrutowana w warunkach hospitalizacji dziecka), jest zgodne z ogólnościowym trendem niedoreprezentowania ojców w badaniach prowadzonych na pacjentach pediatrycznych (Jakubowska-Pietkiewicz i in., 2017; Krzywdzińska i in., 2016; Minczakiewicz, 2011; Pisula, 2003), także tych z OI (Dahan-Oliel i in., 2016). Jednocześnie należy podkreślić zgłaszane przez wielu autorów zapotrzebowanie na przeprowadzenie analiz z udziałem ojców dzieci chorych na OI w przyszłości (Dąbrowska-Wnuk, Soroka, 2017; Gałęska, 2015; Rembowski, 1972). Badania takie, uwzględniające zarówno postawy matek, jak i ojców, umożliwiłyby wgląd w zagadnienie spójności postaw lub ich wzajemnie kompensacyjny charakter w przypadku prezentowania przez jednego z opiekunów postaw niesprzyjających rozwojowi dziecka (por. Marmola, 2015; Minczakiewicz, 2003; Rostowska, 2008; Wójcik-Olszewska, 2002; Ziemska, 2009);

- w przyszłych badaniach trzeba byłoby wziąć po uwagę aspekt zmienności i dopasowania postaw rodzicielskich w kontekście przeobrażeń rozwojowych dziecka (por. Bochniarz, 2010; Ziemska, 2009). Podejście takie wymagałoby jednak przeprowadzenia badań podłużnych z wielokrotnym pomiarem;

- ważne wydaje się badanie innych zmiennych wyznaczających rodzicielskie ustosunkowanie do dzieci i młodzieży z rozpoznaniem OI, w których należałoby uwzględnić uwarunkowania obecne zarówno po stronie opiekunów, jak i dziecka. Na problem ten zwracają uwagę badacze zajmujący się zagadnieniem postaw wobec dzieci prezentujących odstępstwa od normy w zakresie stanu zdrowia (por. Bielawska-Batorowicz, 1995; Cassidy, 1999; Gray, 2010; Raby, Dozier, 2019);

- ciekawym zagadnieniem do przyszłej eksploracji byłaby także ocena postaw rodzicielskich dokonana przez dzieci. Młody wiek osób biorących udział w prezentowanych badaniach nie pozwolił na przeprowadzenie takich analiz. Sporadyczne informacje uwzględniające perspektywę pacjentów pediatrycznych, z inną niż OI chorobą, na temat postaw ich rodziców potwierdzają występowanie różnic w ocenie postaw rodzicielskich w diadach rodzic – dziecko (por. Dmitruk, Kułak, 2014; Eiser, Varni, 2013; Juroszek, 2018; Mazur i in., 2008).

Pomimo występujących niedoskonałości prezentowanych badań przytoczone dane wydają się optymistyczne. Jeśli nawet przyjąć za Pisulą (2003), że uzyskane rezultaty nie są wynikiem pozytywnego ustosunkowania opiekunów do dzieci chorych na OI (odpowiadającego temu przejawianemu przez rodziców dzieci z niewielkimi problemami zdrowotnymi), a jedynie skutkiem obniżenia ich standardów rodzicielskich, spostrzeżenia te oznaczają, że w przypadku rodziców

dzieci chorych na OI mamy do czynienia z jakościową odrębnością postaw. U źródeł ustosunkowania rodziców do dzieci z obydwu grup mogą tkwić odmiennie znaczeniowo emocje, myśli i zachowania, będące składowymi poszczególnych postaw (Howe, 2006; Pawelczak, Buchnat, 2013; Reber, Reber, 2000; Wojciszke, 2003). Tezę tę pośrednio potwierdzają słowa Dyches i in. (2012, s. 2218), którzy podkreślają, że: „Rodzicom [dzieci przewlekle chorych] może być trudniej czuć się związanymi i szanować indywidualność dziecka, którego zachowania nie są zbyt dobrą reakcją na tradycyjnie pozytywne zachowania rodzicielskie [...] Rodzice mogą potrzebować adaptować inne zachowania rodzicielskie lub procesy myślowe [...], aby uniknąć wzorców negatywnego rodzicielstwa, które mogą jeszcze bardziej zaszkodzić dziecku”. W kontekście tych spostrzeżeń postulat dotyczący możliwości odmiennego rozumienia poszczególnych postaw przez rodziców dzieci chorych i zdrowych, głoszony także w odniesieniu do innych paradygmatów psychologicznych przez Bernat i in. (2008), Findler i in. (2016) oraz Pisulę (2003), zyskuje nowy wymiar. Wskazuje on, że zachowanie opiekuna pacjenta pediatrycznego polegające na obniżeniu standardu wychowawczego, nawet jeśli ma charakter obronny, w ostatecznym rozrachunku w dwojaki sposób może służyć chorym dzieciom. Po pierwsze, prezentowanie przez rodzica sprzyjających dziecku postaw poprawia wzajemne relacje rodzic–dziecko, co pozwala widzieć rodziców w roli dysponentów zasobów wspierających rozwój i kompensujących jego deficyty (Findler i in., 2016; Howe, 2006; Pisula, 1998). Na walor rodziny jako potencjalnego środowiska wspierającego polskie dzieci z OI zwrócili uwagę Albińska i in. (2018, 2020) oraz Jakubowska-Pietkiewicz i in. (2017). Po drugie, niniejsze doniesienie daje nadzieję dzieciom, wobec których opiekunowie nie przejawiają pozytywnych postaw, a których obecności prezentowana analiza nie ujawniła. Badania prowadzone na świecie w ostatnich latach, które propagują zintegrowane podejścia terapeutyczne uwzględniające i różnorodnie akcentujące wagę pracy terapeutycznej nad każdą z komponent postawy (poznawczą, emocjonalną i behawioralną), umożliwiają wdrażanie interwencji terapeutycznych sprzyjających modyfikacji postaw rodzicielskich w bardziej pozytywnym kierunku (Bochniarz, 2010; Powell i in., 2015; Wallin, 2011; Wyczesany, 2010; Young i in., 2019; Ziemska, 2009).

WNIOSKI

1) Nie stwierdzono statystycznie istotnych różnic pomiędzy rodzicami dzieci z IO oraz rodzicami dzieci z NG Ca-P w zakresie prezentowanych postaw rodzicielskich, co pozwala wnioskować o występowaniu pozytywnych postaw rodzicielskich wobec dzieci z OI. Rodzice dzieci z wrodzoną łamliwością kości prezentowali wobec nich wysoki poziom akceptacji, przeciętne nasilenie wymagań, ochrony oraz

przyzwolenia na autonomię. Opiekunów dzieci z OI charakteryzował także niski poziom niekonsekwencji wobec podopiecznych.

2) Konieczne są dalsze badania celem poszukiwania szczegółowych wyznaczników odpowiedzialnych za kształtowanie postaw rodzicielskich wobec dzieci z wrodzoną łamliwością kości.

BIBLIOGRAFIA

- Ablon J. (2010). *Brittle bones, stout hearts and minds: Adults with osteogenesis imperfecta*. Sudbury: Jones and Barlett Publishers.
- Albińska P., Michałus I., Chlebna-Sokół D. (2018). Psychospołeczne problemy rodziców na wczesnych etapach diagnostyki i leczenia dzieci z wrodzoną łamliwością kości typu III. *Spoleczeństwo i Rodzina*, 55(2), 118–137.
- Albińska P., Chlebna-Sokół D., Jakubowska-Pietkiewicz E. (2020). Ocena jakości życia związanej ze stanem zdrowia dzieci i młodzieży z rozpoznaną wrodzoną łamliwością kości. *Przegląd Pediatryczny*, 1, 65–74.
- Bartnikowska U., Ćwirynkało K. (2013). *Rodziny adopcyjne i zastępcze dziecka z niepełnosprawnością*. Kraków: Oficyna Wydawnicza Impuls.
- Bereza B., Szymczuk D. (2016). Psychologiczne uwarunkowania prawidłowych relacji w rodzinie. *Kwartalnik Naukowy*, 4(28), 173–182.
- Bernat E., Mikulincer M., Shaver P. (2008). Mothers' attachment style, their mental health, and their children's emotional vulnerabilities. A 7-year study of children with congenital health disease. *Journal of Personality*, 76(1), 31–65. <https://doi.org/10.1111/j.1467-6494.2007.00479.x>
- Bielawska-Batorowicz E. (1995). *Determinanty spostrzegania dziecka przez rodziców w okresie poporodowym*. Łódź: Wydawnictwo Uniwersytetu Łódzkiego.
- Bochniarz A. (2010). *Postawy rodzicielskie a funkcjonowanie społeczne jedynaków*. Lublin: Wydawnictwo Uniwersytetu Marii Curie-Skłodowskiej.
- Bowlby J. (2007). *Przywiązanie*. Warszawa: Wydawnictwo Naukowe PWN.
- Braun-Gałkowska M. (1991). *Metody badania systemu rodzinnego*. Lublin: Redakcja Wydawnictw KUL.
- Brock R. (1975). *Multivariate statistical methods in behavioral research*. New York: McGraw-Hill.
- Cassidy J. (1999). The nature of child's ties. W: J. Cassidy, P. Shaver (ed.), *Handbook of attachment. Theory research and clinical applications* (3–24). New York: The Guilford Press.
- Chiasson R.M. (2004). Living with child with osteogenesis imperfecta. W: R.M. Chiasson et al. (ed.), *Interdisciplinary treatment approach of children with osteogenesis imperfecta* (187–196). Montreal: Shriners Hospitals for Children.
- Chrzan-Dętko M. (2010). Psychodynamiczne rozumienie macierzyństwa – implikacje dla praktyki klinicznej. *Psychoterapia*, 1(52), 5–14.
- Cierpiałkowska L. (2020). Współczesna psychoanaliza i jej znaczenie dla psychologii klinicznej. W: L. Cierpiałkowska, H. Sęk (red.), *Psychologia kliniczna* (101–126). Warszawa: Wydawnictwo Naukowe PWN.
- Cohen S., Biesacker B. (2010). Quality of life in rare genetic conditions: A systematic review of the Literature. *American Journal of Medical Genetics*, 152A, 5, 1136–1156. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.33380>

- Ćwirynkało K., Włodarczyk-Dutka M., Arciszewska A. (2015). Postawy rodziców wobec dzieci z orzeczeniem o potrzebie kształcenia specjalnego. *Przegląd Badań Edukacyjnych*, 21(2), 59–60. <https://doi.org/10.12775/PBE.2015.047>
- Dahan-Oliel N., Oliel S., Tsimicalis A., Montpetit K., Rauch F., Dogba M. (2016). Quality of life in osteogenesis imperfecta: A mixed-methods systematic review, *American Journal of Medical Genetics*, Part A, 170A, 62–76. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.37377>
- Dąbrowska-Wnuk M., Soroka J. (2017). Zaangażowanie mężczyzn – przyszłych ojców w proces oczekiwania narodzin dziecka a styl przywiązania do partnerki. *Humanum. Międzynarodowe Studia Społeczno-Humanistyczne*, 25(2), 19–38.
- Dmitruk E., Kułak W. (2014). Jakość życia dzieci i młodzieży. W: W. Kułak, B. Okurowska-Zawada, D. Sienkiewicz, G. Poszko-Patej (red.), *Współczesne metody rehabilitacji dzieci i młodzieży* (8–23). Białystok: Uniwersytet Medyczny w Białymstoku.
- Dogba M., Bedos Ch., Durigova M., Montpetit K., Wong T., Glorieux F., Rauch F. (2013). The impact of severe osteogenesis imperfecta on the lives young patients and their parents – a qualitative analysis. *BMC Pediatrics*, 13, 153–160. <https://doi.org/10.1186/1471-2431-13-153>
- Dung V., Armstrong K., Ngoc C., Thao B., Khnah N., Trang N., Hoan N., Dat N., Munns C. (2013). Effects of osteogenesis imperfecta on children and their families. *International Journal of Endocrinology*, Suppl. 1, P169. <https://doi.org/10.1186/1687-9856-2013-S1-P169>
- Dyches T., Smith T., Korth B., Roper S., Mondleco B. (2012). Positive parenting of children with developmental disabilities: A meta-analysis. *Research in Developmental Disabilities*, 33, 2213–2220. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2012.06.015>
- Eiser Ch., Varni J. (2013). Health-related quality of life and symptom reporting: Similarities and differences between children and their parents. *European Journal of Pediatrics*, 10, 1299–1304. <https://doi.org/10.1007/s00431-013-2049-9>
- Fano V., del Pinto M., Rodriguez C., Buceta S., Obregon G. (2013). Osteogenesis imperfecta: Estudio de la calidad de vida en los niños. *Archivos Argentinos de Pediatría*, 111(4), 328–331. <https://doi.org/10.5546/aap.2013.328>
- Findler L., Jacoby A., Gabis L. (2016). Subjective happiness among mothers of children with disabilities. The role of stress, attachment, guilt and social support. *Research of Developmental Disabilities*, 55, 44–54. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2016.03.006>
- Forma P. (2013). Antynomia postaw rodzicielskich wobec niepełnosprawnego dziecka – diagnoza i wskazania pedagogiczne. *Pielęgniarstwo i Zdrowie Publiczne*, 3(4), 359–365.
- Gałęska U. (2015). Przeobrażenia więzi społecznych w rodzinie XXI wieku. *Wychowanie w Rodzinie*, 1, 27–41.
- Gracka-Tomaszewska M. (2006). Matczyzna reprezentacja dziecka – modele teoretyczne i ich znaczenie dla praktyki klinicznej. *Psychiatria i Psychologia Kliniczna*, 6(4), 193–198.
- Gray D. (2010). *Adopcja i przywiązanie: Praktyczny poradnik dla rodziców*. Sopot: Gdańskie Wydawnictwo Psychologiczne.
- Hill C., Barid W., Walters S. (2014). Quality of life in children and adolescents with osteogenesis imperfecta: A qualitative interview-based study. *Health and Quality of Life Outcomes*, 12(54), 1–9. <https://doi.org/10.1186/1477-7525-12-54>
- Hill M., Lewis C., Riddington M., Crowe B., DeVile C., Gotherstrom C., Chitty L. (2019). Exploring the impact of osteogenesis imperfecta on families: A mixed-methods systematic review. *Disability and Health Journal*, 12(3), 340–349. <https://doi.org/10.1016/j.dhjo.2018.12.003>
- Howe D. (2006). Disabled children, parent-child interaction and attachment. *Child and Family Social Work*, 11, 95–106. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2206.2006.00397.x>
- Jakubowska-Pietkiewicz E., Graff K., Michałus I., Haładaj K., Jelonek E., Adamiecka P., Dziedzic K., Woźniak E., Orzechowska G., Porczyński M., Albińska P., Chlebna-Sokół D. (2017). Analiza

- wskaźników okolicyrodowych i wybranych czynników środowiskowych u dzieci z wrodzoną łamliwością kości. *Przegląd Pediatryczny*, 46(3), 10–15.
- Jankoniuk-Diallo A. (2006). Warunki zaspokojenia własnej wartości u dzieci z zaburzeniami rozwoju. W: A. Twardowski (red.), *Wspomaganie dzieci z genetycznie uwarunkowanymi wadami rozwoju i ich rodzin*. Poznań: Polskie Towarzystwo Psychologiczne.
- Juroszek W. (2018). *Znaczenie postaw rodzicielskich i stylów przywiązania dla funkcjonowania psychospołecznego dziecka w życiu dorosłym*. Kraków: Oficyna Wydawnicza Impuls.
- Kościelska M. (1995). *Oblicza upośledzenia*. Warszawa: Wydawnictwo Naukowe PWN.
- Krzywdzińska A., Radomska B., Hozyasz K. (2015). Emocjonalno-społeczne problemy rodziny i dzieci chorych na galaktozemię. Przyczynek do dyskusji na temat roli wsparcia psychologicznego rodzin pacjentów dotkniętych wrodzonymi błędami metabolizmu. *Higiena i Zdrowie Publiczne*, 50(3), 514–520.
- Kulik M., Otrębski W. (2012). Funkcjonowanie rodziny z dzieckiem niepełnosprawnym w wyniku choroby genetycznej. *Polskie Forum Psychologiczne*, 1, 91–104.
- Kulisiak-Kazimierzczak J. (2010). „Grupa wsparcia” jako istotna forma pomocy dla rodzin z rzadkimi zespołami genetycznymi. W: J. Wyczesany (red.), *Wspomaganie rozwoju dzieci z zaburzeniami genetycznymi* (161–168). Poznań: Stowarzyszenie GEN.
- Kwak A. (2005). *Rodzina w dobie przemian. Małżeństwo i kohabitacja*. Warszawa: Wydawnictwo Akademickie Żak.
- Lewandowska-Kidoń T., Kozanecka-Kozerska A. (2015). *Style wychowania i postawy rodzicielskie wobec dzieci z zaburzeniami oddawania moczu*. Warszawa: Dom Wydawniczy Elipsa.
- Liberska H., Matuszewska M. (2011). Model rodziny z dzieckiem niepełnosprawnym. W: H. Liberska (red.), *Rodzina z dzieckiem niepełnosprawnym – możliwości i ograniczenia rozwoju* (41–66). Warszawa: Wydawnictwo Difin.
- Ładyżewski A. (2011). Małżeństwo – związek rozwojowy (z) trudem budowany. W: W. Muszyński (red.), *Więzi w małżeństwie i rodzinie – zaufanie – współdziałanie – zależności*. Toruń: Wydawnictwo Adam Marszałek.
- Malina A. (2011). Sposoby adaptacji do choroby dziecka rodziców dzieci przewlekle chorych. W: H. Liberska (red.), *Rodzina z dzieckiem niepełnosprawnym – możliwości i ograniczenia rozwoju* (217–233). Warszawa: Wydawnictwo Difin.
- Malina A., Suwalska-Barancewicz D. (2017). Wzajemne przywiązanie partnerów i wsparcie a ich satysfakcja z życia na różnych etapach rozwoju rodziny. *Psychologia Rozwojowa*, 2, 55–69.
- Mandache R., Macovei S. (2014). The aquati environment – ways of improving the quality of life for children suffering of diagnosed imperfect osteogenesis (OI). *Science, Movement and Health*, 2 suppl., 14, 460–464.
- Marmola M. (2015). Relacje w małżeństwie a postawy rodziców wobec niepełnosprawnych dzieci. *Kultura – Przemiany – Edukacja*, 3, 132–143. <https://doi.org/10.15584/kpe.2015.3.9>
- Marody M. (1978). *Sens teoretyczny a sens empiryczny pojęcia postawy*. Warszawa: Państwowe Wydawnictwo Naukowe.
- Marr C., Seasmann A., Bishop N. (2017). Managing the patient with osteogenesis imperfecta: A multidisciplinary approach. *Journal of Multidisciplinary Healthcare*, 10, 145–155. <https://doi.org/10.2147/JMDH.S113483>
- Mazur J., Małkowska-Szatnik A., Dzielska A., Tabak I. (2008). *Polska wersja kwestionariuszy do badania jakości życia związanej ze zdrowiem dzieci i młodzieży (KIDSCREEN)*. Warszawa: Instytut Matki i Dziecka.
- Mika S. (1981). *Psychologia społeczna*. Warszawa: Państwowe Wydawnictwo Naukowe.
- Minczakiewicz E. (2003). Efekty stosowania programu wsparcia społecznego rodzin wychowujących dziecko z zespołem Downa. W: I. Janicka, T. Rostowska (red.), *Psychologia w służbie rodziny* (297–311). Łódź: Wydawnictwo Uniwersytetu Łódzkiego.

- Minczakiewicz E. (2011). Rodzina jako środowisko wychowawcze dziecka z deficytami rozwoju. Społeczna rola ojca jako opiekuna i facylitatora. *Wychowanie w Rodzinie*, 4, 35–46.
- Monti E., Mottes M., Frascini P., Brunelli P., Forlino A., Venturi G., Doro F., Perlini S., Caverzere P., Antoniazzi F. (2010). Current and emerging treatments for the management of osteogenesis imperfecta. *Therapeutics and Clinical Risk Management*, 6, 367–381. <https://doi.org/10.2147/TCRM.S5932>
- Pawelczak K., Buchnat M. (2013). Wsparcie rodziców małego dziecka z rzadkim zespołem genetycznym. W: M. Buchnat, K. Pawelczak (red.), *Zaburzenia rozwojowe u dzieci z rzadkimi zespołami genetycznymi i wadami wrodzonymi* (307–325). Poznań: Wydawnictwo Uniwersytetu Adama Mickiewicza.
- Pisula E. (1998). *Psychologiczne problemy rodziców dzieci z zaburzeniami rozwoju*. Warszawa: Wydawnictwa Uniwersytetu Warszawskiego.
- Pisula E. (2003). *Autyzm i przywiązanie*. Gdańsk: Gdańskie Wydawnictwo Psychologiczne.
- Płopa M. (2008). *Więzi w małżeństwie i rodzinie: Metody badań*. Kraków: Oficyna Wydawnicza Impuls.
- Powell B., Cooper G., Hoffman K., Marvin B. (2015). *Krąg ufności: Interwencja wzmacniająca przywiązanie we wczesnych relacjach rodzic-dziecko*. Kraków: Wydawnictwo Uniwersytetu Jagiellońskiego.
- Raby K., Dozier M. (2019). Attachment across the lifespan: Insights from adoptive families. *Current Opinion in Psychology*, 25, 81–85. <https://doi.org/10.1016/j.copsyc.2018.03.011>
- Reber A., Reber E. (2000). *Słownik psychologii*. Warszawa: Wydawnictwo Naukowe Scholar.
- Reite M., Davis K., Solomons C., Ott J. (1972). Osteogenesis imperfecta: Psychological function. *American Journal of Psychiatry*, 128(12), 1540–1546. <https://doi.org/10.1176/ajp.128.12.1540>
- Rembowski J. (1972). *Więzi uczuciowe w rodzinie: Studium psychologiczne*. Warszawa: Państwowe Wydawnictwo Naukowe.
- Rembowski J. (1980). Rodzina jako system powiązań. W: M. Ziemska (red.), *Rodzina i dziecko* (127–142). Warszawa: Państwowe Wydawnictwo Naukowe.
- Rostowska T. (2008). *Małżeństwo, rodzina, praca a jakość życia*. Kraków: Oficyna Wydawnicza Impuls.
- Sadowska L., Skórczyńska M., Błażejczyk M., Choińska A., Górecka B., Bibrowska R., Przygoda L. (2010). Kształtowanie się więzi uczuciowej między matką a dzieckiem z niepełnosprawnością psychosomatyczną – cz. 1. *Przegląd Medyczny Uniwersytetu Rzeszowskiego*, 1, 21–29.
- Song Y., Zhao D., Li L., Lv F., Wang O., Jiang Y., Xia W., Xing X., Li M. (2019). Health-related quality of life in children with osteogenesis imperfecta: A large sample study. *Osteoporosis International*, 30(2), 461–468. <https://doi.org/10.1007/s00198-018-4801-5>
- Sowa E., Włodarczyk E. (2017). Doświadczenie macierzyństwa przez kobiety mające dzieci z niepełnosprawnością. W: E. Włodarczyk (red.), *W trosce o macierzyństwo* (95–108). Poznań: Wydawnictwo Uniwersytetu Adama Mickiewicza.
- Stahecker J., Cohen M. (1985). Application of the strange situation attachment paradigm to a neurologically impaired population. *Child Development*, 56, 1184–1199. <https://doi.org/10.2307/1129737>
- Stawicka M. (2008). *Autodestruktywność dziecięca w świetle teorii przywiązania*. Poznań: Wydawnictwo Uniwersytetu Adama Mickiewicza.
- Stelter Ź. (2011). Realizacja ról rodzinnych z dzieckiem niepełnosprawnym. W: H. Liberska (red.), *Rodzina z dzieckiem niepełnosprawnym – możliwości i ograniczenia rozwoju* (67–94). Warszawa: Wydawnictwo Difin.
- Stelter Ź. (2012). Osoba niepełnosprawna – inne rodzicielstwo, inne ojcostwo? *Polskie Forum Psychologiczne*, 1, 105–138.

- Suskauer S., Cintas H., Marini J., Gerber L. (2003). Temperament and physical performance in children with osteogenesis imperfecta. *Pediatrics*, 111(2), 153–161. <https://doi.org/10.1542/peds.111.2.e153>
- Szczepaniak R. (2000). Rodzina wobec dziecka chorego. *Problemy Opiekuńczo-Wychowawcze*, 8, 35–38.
- Szczepaniak-Kubat A., Kurnatowska O., Jakubowska-Pietkiewicz E., Chlebna-Sokół D. (2012). Assessment of quality of life of patients with osteogenesis imperfecta. *Advances in Clinical and Experimental Medicine*, 21(1), 99–104.
- Szymczak W. (2018). *Praktyka wnioskowania statystycznego*. Łódź: Wydawnictwo Uniwersytetu Łódzkiego.
- Tsimicalis A., Denis-Larocque G., Michalowic A., Lepage C., Williams K., Yao T., Palomo T., Dahan-Oliel N., Ia May S., Rauch F. (2016). The psychosocial experience of individuals living with osteogenesis imperfecta: A mixed-methods systematic review. *Quality of Life Research*, 25, 1877–1896. <https://doi.org/10.1007/s11136-016-1247-0>
- Tyszka Z. (1993). Rodzina. W: W. Pomykała (red.), *Encyklopedia Pedagogiczna*. Warszawa: Fundacja Innowacja.
- Urmańska W. (2007). Wczesna interwencja psychologiczna w procesie uczenia się rodzicielstwa. W: G. Kwaśniewska (red.), *Interdyscyplinarność procesu wczesnej interwencji wobec dziecka i jego rodziny* (68–77). Lublin: Wydawnictwo Uniwersytetu Marii Curie-Skłodowskiej.
- van Dijk F., Sillence D. (2014). Osteogenesis imperfecta: Clinical diagnosis, nomenclature and severity assessment. *American Journal of Medical Genetics, Part A*, 164A, 1470–1481. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.36545>
- Vanz A., Felix T., da Rocha N., Schwartz I. (2015). Quality of life in caregivers of children and adolescents with osteogenesis imperfecta. *Health and Quality of Life Outcomes*, 13, 41–45. <https://doi.org/10.1186/s12955-015-0226-4>
- Wallin D. (2011). *Przywiązanie w psychoterapii*. Kraków: Wydawnictwo Uniwersytetu Jagiellońskiego.
- Wiliński M. (2009). Wspomaganie rozwoju nastolatka z ograniczoną sprawnością. W: A. Brzezińska, M. Ohme, A. Resler-Maj, R. Kaczan, M. Wiliński (red.), *Droga do samodzielności. Jak wspomagać rozwój dzieci i młodzieży z ograniczoną sprawnością* (193–245). Gdańsk: Gdańskie Wydawnictwo Psychologiczne.
- Wojaczek M. (2014). Dialog dziewięciu miesięcy – wybrane aspekty budowania więzi z dzieckiem w prenatalnym okresie życia. W: E. Lichtenberg-Kokoszka, E. Janiuk, P. Kierpal (red.), *Prenatalny okres życia: Zagadnienia interdyscyplinarne* (55–64). Kraków: Oficyna Wydawnicza Impuls.
- Wojciszke B. (2003). Postawy i ich zmiana. W: J. Strelau (red.), *Psychologia*, t. 3 (79–106). Gdańsk: Gdańskie Wydawnictwo Psychologiczne.
- Wójcik-Olszewska G. (2002). Postawy rodzicielskie. *Kurier Pedagogiczny*, 12, 10.
- Wyczesany J. (2010). Rodzaje wsparcia udzielanego rodzicom przez terapeutów w świetle ich wypowiedzi. W: J. Wyczesany (red.), *Wspomaganie rozwoju dzieci z zaburzeniami genetycznymi* (133–139). Poznań: Stowarzyszenie GEN.
- Young J., Kłosko J., Weishaar M. (2010). *Terapia schematów: Przewodnik praktyka*. Gdańsk: Gdańskie Wydawnictwo Psychologiczne.
- Ziemska M. (1977). *Rodzina a osobowość*. Warszawa: Wiedza Powszechna.
- Ziemska M. (2009). *Postawy rodzicielskie*. Warszawa: Wiedza Powszechna.