



희귀유전대사질환 아동 어머니의 양육 스트레스와 죄책감

권은경¹⁾ · 최미혜²⁾ · 김수강³⁾

I. 서 론

1. 연구의 필요성

지금까지 알려진 희귀질환의 종류는 6,000여종 이상으로 매우 다양하다. 보건복지부는 희귀난치성 질환자 및 그 가족도 입관계자 회의자료를 통해 2천명 미만의 질환을 희귀질환으로 보았고, 희귀약품 지정에 관한 고시에서는 2만명 이하의 질환을 희귀질환으로 정의하고 있다(한국희귀의약품센터, 2000). 그러나 아직까지 희귀질환의 역학조사가 체계적으로 수행된 바 없어 정확한 유병률에 대한 자료가 미비한 실정이며 그 유병률이 낮다는 이유에서 원인규명과 치료법 개발에 소홀했고 사회적으로 소외되어 왔다. 희귀난치성 질환은 말대로 희귀하기에 일반인들이 이러한 환자와 가족을 만나기 쉽지 않고 현대 의학의 수준으로 완치를 기대할 수 없어 환자의 육체적인 고통과 함께 경제적, 정신적, 가정적으로 매우 부담이 크다(이해석, 2004).

뮤코다당체 침착증(MPS: Mucopolysaccharidosis)과 프래더 윌리 증후군(PWS: Prader-Willi syndrome)은 소아연령에서 볼 수 있는 대표적인 희귀유전대사질환으로서 이 두 가지 질환은 유전양상과 증상면에서 각각 다르지만 뚜렷한 완치법이 없이 삶을 유지시키기 위하여 지속적인 보조치료가 요구되는 공통점이 있다. 또한, 보통사람과 다른 공통적인 외모를 보이며 대부분 정신지체, 뇌병변장애, 발달장애 등 다양한 장애를 가지고 있다(송승미, 2001; Wigren, & Hansen, 2003).

2000년 이후 장애아동 가족과 관련된 국내외 논문들 중 양육 스트레스와 가족기능에 대한 연구로는 주로 정신지체아와 발달 장애아 부모에 대한 연구가 많았고(이한우, 2002;

Hassall, Rose, & McDonald, 2005) 그 외 소아암, 소아당뇨병, 다운증후군, 선천성심장질환, 아토피피부염 등 질병을 가진 아동을 둔 부모들의 스트레스에 대한 연구들(유일영과 김동희, 2004; 이숙영, 2002; Macias, Saylor, Rowe, & Bell, 2003; Uzark, & Jones, 2003)이 대부분이었다. 하지만 국내에서 이와 같은 희귀유전대사질환에 대한 연구로는 대부분 의학적인 처치에 관한 임상보고서만 보고되고 있어 환아와 그 가족에 관한 실태조사나 사회학적 연구논문은 거의 전무한 실정이다.

장애아동을 둔 부모들은 자신의 자녀가 장애아동이라는 사실을 알게 되었을 때 큰 충격을 받으며 수치심, 우울, 죄책감, 분노와 같은 정서적 반응을 보이며, 실제 장애아 부모의 심리적 반응 중 4번째 단계로서 책임감과 죄책감이 있다(이영호, 2000).

최근 James, Hadley, Holtzman과 Winkelstein(2006)의 연구에서는 유전질환 가족의 유전형식이 가족들의 심리에 어떤 영향을 주는지 살펴보았는데, 모계유전 가족의 어머니들이 상염색체 열성 유전 형식 가족의 어머니들보다 죄의식을 많이 느끼고 있었고 자신을 탓하는 것은 물론 남편으로부터 비난을 더 많이 받고 있었다고 하였다. 그리고 자녀의 유전질환 진단을 위하여 검사 결과를 기다리고 있는 부모의 경험에 대한 Skirton (2006)의 연구에서도 그 어머니들이 주로 죄책감을 표현하였다고 기술하였다.

간호사의 역할에 있어 부모의 양육 스트레스와 죄책감을 이해하고, 대처능력 향상을 통해 그들이 잘 적응할 수 있도록 돕는 것은 질병을 가진 아동에 대한 치료나 교육 못지않게 매우 중요하다고 할 수 있다.

따라서, 본 연구자는 희귀유전대사질환인 뮤코다당체 침착증

주요어: 희귀유전대사질환 아동, 희귀질환 아동, 양육 스트레스, 죄책감

1) 제1저자: 삼성서울병원 간호사, 2) 중앙대학교 의과대학 간호학과 교수, 3) 중앙대학교 간호과학연구소 연구원

투고일: 2008년 9월 22일 심사외의일: 2008년 10월 6일 게재확정일: 2008년 10월 28일

과 프레더일리 증후군 아동의 어머니들을 대상으로 그들의 양육 스트레스와 죄책감을 살펴봄으로써 이를 통해 환아와 그 가족에 대한 이해를 돕고, 양육 스트레스와 죄책감을 완화시킬 수 있는 방안을 모색할 수 있는 기초자료로 활용하고자 한다.

2. 연구목적

본 연구의 구체적인 목적은 다음과 같다.

- (1) 대상자의 양육 스트레스와 죄책감의 정도를 파악한다.
- (2) 대상자의 일반적 특성에 따른 양육 스트레스의 차이를 확인한다.
- (3) 대상자의 일반적 특성에 따른 죄책감의 차이를 확인한다.
- (4) 대상자의 양육 스트레스와 죄책감과의 상관관계를 확인한다.

3. 용어의 정의

1) 희귀유전대사질환 아동의 어머니

유병률이 2,000명 이하인 희귀질환이면서 유전성 소인과 관련이 있고 대사이상 질환의 아동을 양육하고 있는 어머니를 말한다. 본 연구에서는 MPS(뮤코다당체 침착증) 혹은 PWS(프레더일리 증후군)로 진단 받은 지 3개월이 지나고 정기적인 진료를 받고 있는 아동의 어머니를 의미한다.

2) 양육 스트레스

일상생활에서 부모의 역할을 수행할 때 느끼는 스트레스(Abidin, 1995)를 말하며, 본 연구에서는 Abidin(1995)의 단축형 양육 스트레스 도구(PSI/SF: Parenting Stress Index/Short form)를 사용하여 측정된 점수가 높을수록 양육 스트레스가 높음을 의미한다.

3) 죄책감

저지른 잘못에 대하여 책임을 느끼는 마음(엘리트 국어사전, 2006)으로써 본 연구에서는 아픈 자녀, 특히 장애아 부모에게 일어나는 심리적 반응(홍강의, 1986)을 말하며 연구자가 개발한 죄책감 도구를 사용하여 측정된 점수가 높을수록 죄책감이 높음을 의미한다.

II. 문헌고찰

희귀유전대사질환에 대한 정확한 정의는 없으며, 희귀질환

이면서 유전성 소인과 관련이 있고 대사이상을 가진 질환으로 대부분 완치법이 없는 난치성 질환이다. 희귀난치성 질환이란 말 그대로 희귀한 질병, 치료가 어렵거나 불가능한 질병들에 대해서 우리나라 보건복지부가 붙인 이름이다. 보건복지부는 희귀난치성 질환자 및 그 가족모임관계자 회의 자료에서 희귀질환을 2천명 미만으로 보았고, 희귀의약품 지정에 관한 고시에서는 2만명 이하인 질병으로 간주했다(한국희귀의약품센터, 2000).

뮤코다당체 침착증(MPS)과 프레더일리 증후군(PWS)는 소아연령에서 볼 수 있는 대표적인 희귀유전대사질환이다. MPS는 복합당 분해에 필요한 라이소좀 효소의 부족에 의해서 이러한 복합당이 세포의 라이소좀내에 축적되고 점차적인 육체적, 정신적인 퇴행을 보이다가 심한 경우 조기에 사망하게 되는 다양한 임상양상을 보이는 질병군이다. MPS의 임상형 중 2형에 해당하는 Hunter 증후군은 국내에 가장 많은 유형으로 유일하게 성염색체(X염색체) 열성 유전(모계유전)을 하므로 남아에게서 발병하며 그 외에는 상염색체 열성 유전을 하고 있다(송승미, 2001). PWS는 아버지로부터 물려받은 15번 염색체에서 특정 유전자(SNRPN)의 결손이나 각인 장애의 원인으로 오며 저신장, 성선기능장애, 근육약화, 심각한 비만, 정신지체, 행동발달 장애 등 다양한 건강상의 문제를 보여주는 질환이다. 치료로는 완치법이 없으며, 효소보충법의 치료가 있으나 MPS 1형 혈허 증후군에서만 1주일에 한번씩 정맥 주사치료를 받고 있고 그 외 환자들은 보존적 치료로 생명을 연장하고 있는 실정이다(진동규, 2006).

희귀·난치성질환에 대한 국가차원의 대처실태를 보면, 사회적 고립과 동시에 경제적 부담으로 허덕이고 있는 환자와 그 가족들에게 가장 직접적인 도움이 되는 의료비 지원의 대상이 한정되어 있고, 질환을 치료할 만한 전문적 의료인과 의료기관이 미흡하며 이들 질환의 치료를 위한 국가차원의 연구사업도 미흡하다.

또한 질병에 대한 정보제공과 환자들을 관리할 수 있는 관리 프로그램도 부재한 실정이다(이해석, 2004). 2002년 한국보건사회연구원의 자료에 따르면, 희귀·난치성 질환자의 최근 질병상태 변화에 대한 질문을 한 결과 응답자 중 52.25%가 전보다 악화되고 있다고 하였으며, 삶의 질을 평가한 결과 연령이 증가할수록 삶의 질이 낮았고 도시영세민보다도 삶의 질이 다소 낮은 것으로 나타났다.

이런 희귀·난치성 질환아를 포함하는 대부분의 장애아동은 다른 아이들에 비하여 부모의 에너지를 소모시키는 요구들이 많고 노력에 비해 보상이 적다는 점, 미래에 대한 희망이 적다는 점 등이 스트레스로 작용한다. 이러한 부모들의 생활상의 문제로는 재정적인 어려움, 양육의 부담, 여가활동의 부족 등

이 있고 무엇보다도 주변 사람이나 세상 사람들의 편견과 따가운 시선 등으로 인한 심리적인 위축과 결핍을 가져올 수 있다(이영호, 2000).

양육 스트레스에 영향을 주는 요인 중 먼저 아동의 특성에 따른 영향요인을 살펴보면, 바로 연령이다. 장애아동이 아닌 정상 아동의 경우는 아동이 성장하면서 차츰 스트레스의 정도와 범위가 줄어드는 반면(김미숙, 2005) 장애아동의 경우 학령전기 보다 학령기 아동을 둔 어머니들이 양육 스트레스를 더 경험하고 있었다(이한우, 2002; Macias 등, 2003). 즉, 아동이 성장하면서 가중되는 신체적, 사회적 부적응으로 인하여 스트레스가 더욱 증가한다고 볼 수 있다.

또한 아동이 가진 장애의 심각도 혹은 증상의 심각도 역시 양육 스트레스에 영향을 주는 주요 요인인데, 대부분의 연구에서 아동의 장애가 심각할수록 어머니의 양육 스트레스는 높아짐을 알 수 있다(이재혁, 2005; 이한우, 2002). 희귀질환 아동을 둔 부모의 스트레스를 연구한 Dellve, Samuelsson, Tallborn, Fasth와 Hallberg (2006)은 행동장애와 진행적인 장애아동의 부모들이 그렇지 않은 부모들에 비하여 그들의 건강상의 문제, 사회적 고립감, 특히 엄마에게는 무능력감 등 매우 높은 스트레스 수준을 보였다.

부모의 특성에 따른 양육 스트레스 영향을 살펴보면 어머니의 연령이 어릴수록 아동의 어려운 특성과 관련하여 더 많은 스트레스를 받고 있다고 한 연구(강시열, 2001)가 있는 반면 어머니의 연령이 많을수록 아동영역과 의학적/법적 영역에서 스트레스가 더 높았다고 한 연구(Macias 등, 2003)도 있다. 또한 대부분의 연구에서 직업이 없는 경우, 어머니의 교육수준이 낮고 경제수준이 낮을수록 양육 스트레스가 높았다(이재혁, 2005; Johnston 등, 2003).

Abidin(1995)의 스트레스 모델에 의하면, 자녀양육 스트레스는 상대 배우자와의 결혼 관계나 배우자의 지지가 영향을 미치는 것으로 제시되고 있어 배우자와 친밀한 관계가 유지되고, 배우자의 지지에 대해 만족해 할수록 자녀 양육 스트레스는 감소될 수 있음이 시사되고 있다.

양육 죄책감에 대한 연구로 아픈 자녀에 대한 부모의 심리적 반응으로 살펴본 죄책감에 대한 구체적인 연구는 거의 없는 실정이다. 하지만, 많은 학자들은 의학칼럼 등을 통하여 질환을 가지고 있거나 장애를 가지고 있는 아동을 둔 부모들이 죄책감을 많이 느끼고 있다고 설명하고 있다.

소아암 부모의 경우, 아이가 암이라는 것을 현실로 받아들이게 되자마자 그 일이 어느 정도는 자기들 탓이 아닌지 생각하고 어떤 부모들은 죄책감이 지나쳐서 스스로를 벌하고 싶다고 했고 어떤 부모들은 자기들이 잘못된 어떤 일에 대한 별로 자녀가 암에 걸린 것은 아닐까 생각하기도 한다(백혈병

어린이후원회, 1998). 소아암 외에도 아토피 자녀를 둔 부모(김봉년, 2005), 고도난청아의 부모(이광선과 신정은, 2003), 구순, 구개열 아동의 부모(박혜영, 2000) 등 여러 만성질환 아를 위한 의학칼럼에서도 부모들의 죄책감에 대하여 언급하고 있다.

실제 장애아 부모의 심리적 반응 중 4번째 단계로서 책임감과 죄책감이 있다. “대체 이것이 누구의 잘못이냐”를 따지는 경향이 있어서 이것이 유전적인 것인가, 내가 잘못 길러서 그런 것인가, 임신 중에 어떻게 잘못되었을까 등을 따지면서 죄책감 속에 헤멜 수 있다(이영호, 2000). Gagliardi(1991)은 모계 유전형식을 가진 어머니들은 죄책감을 가장 큰 어려움으로 표현하였다고 하였고 최근 James 등(2006)의 연구에서도 유전 질환을 가진 가족을 대상으로 유전형식이 가족들의 심리에 어떤 영향을 주는지 살펴보았는데 모계유전 가족의 어머니들이 상염색체 열성 유전 가족의 어머니들 보다 죄의식을 많이 느끼고 있고 자신을 탓하는 것은 물론 남편으로부터 비난을 더 많이 받고 있다고 하였다. 또한, 자녀의 유전질환 진단을 위하여 검사 결과를 기다리고 있는 부모의 경험에 대한 Skirton(2006)의 연구를 보면, 그 어머니들은 자녀 상태의 원인에 대하여 죄책감을 주로 표현하였다.

이상의 선행연구를 종합하여 희귀난치성 질환 중 MPS와 PWS 아동 어머니의 양육 스트레스와 죄책감 정도를 파악함으로써 이를 완화하기 위한 방안들을 모색하고자 한다.

III. 연구방법

1. 연구설계

본 연구는 희귀유전대사질환 아동 어머니의 양육 스트레스와 죄책감 정도를 확인하고, 각 변인과의 상관관계를 살펴보는 서술적 상관성 조사연구이다.

2. 연구대상 및 자료수집방법

MPS 혹은 PWS 증후군으로 진단 받은 자녀를 양육하고 있는 어머니로서 진단 받은 지 3개월이 지나고 연구의 참여에 동의한 자를 대상으로 편의 추출하였다. 이때, 아동이 입원치료를 요구할 정도로 건강 악화가 심해진 경우는 제외하였다.

자료수집은 S병원에 등록되어 있는 환자의 어머니에게 연구의 취지를 설명하고 동의를 얻은 후 작성하도록 하였다. 총 158부의 설문지를 배부하였고, 이중 148부는 외래 방문 시 직접 작성 후 수거하였으며 10부는 우편을 통하여 수거하였다.

설문지 수거율은 99%이었고 작성시간은 약 15분 내외였다. 2006년 2월에서 7월까지 자료수집이 이루어졌고 총 156부의 설문지가 결과 분석을 위한 자료로 사용되었다.

본 연구는 사전에 국제 공인을 받은 S병원 IRB(임상시험심사위원회)에 정식 승인을 받은 연구이다(IRB File No: 2006-02-014).

3. 연구도구

1) 양육 스트레스

Abidin이 1990년에 개발한 단축형 양육 스트레스 도구(PSI/SF: Parenting Stress Index/Short Form)를 서혜영(1991)이 번안한 것을 기본으로 본 연구자가 Abidin(1995)의 최신 PSI/SF 도구를 다시 검토하여 수정 보완한 도구이다. 이 도구는 총 36문항으로 3가지 하위척도로 구성되는데, 부모가 자녀 양육에서 경험하는 스트레스를 그 근원에 따라 부모의 스트레스(부모 영역) 12문항, 부모-자녀의 역기능적인 상호작용(부모-자녀관계 영역) 12문항, 아동의 까다로운 기질(아동 영역) 12문항으로 구분하여 측정한다.

응답문항은 5점 리커트 척도로 되어있어 가능한 총점의 범위는 36점에서 180점까지이고 점수가 높을수록 자녀 양육으로 인한 부모의 스트레스 수준이 높다고 볼 수 있다. 총점이 90점 이상일 경우에 전문가의 도움이 필요하다고 해석하고 각 하위 척도 별로 전문가의 도움이 필요한 수준인 상위 90% 이상의 점수, 즉 부모 영역은 36점 이상, 부모-자녀 영역은 27점 이상, 아동 영역은 36점 이상일 경우 심각한 스트레스 수준에 있다고 할 수 있으며 여기에 해당되는 균을 고위험군으로 명명하였다.

개발당시 Abidin(1995)의 PSI/SF는 Cronbach's α 값이 0.91 이었고 본 연구에서는 0.93 이었다.

2) 죄책감

본 연구에서는 유전질환 아동을 둔 부모의 죄책감에 대한 선행연구(Gagliardi, 1991; James 등, 2006)와 부모의 죄책감 내용을 담은 문헌(백혈병어린이후원회, 1998)을 참고하였고 여기에 본 연구자가 희귀유전대사질환 가족을 상담하면서 경험한 것을 토대로 죄책감을 탓, 책임, 징벌, 무력감 등 총 4가지의 큰 개념을 도출하여 변주화한 후 문항 개발을 하였다. 이를 간호학과 교수 1인과 내용 타당도를 점검한 후 구성타당도를 위해 요인분석을 하였다. 요인분석 결과 요인 부하량이 0.78~0.92, 분산비율이 73.2%인 하나의 동일한 차원으로 구성되었음을 확인하였다. 탓에 대한 문항은 “우리아이가 아픈 것은 내 탓인 것만 같다”, 책임에 대한 문항은 “내가 뭘 잘못했나 하는

마음이 들 때가 있다”, 징벌에 대한 문항은 “내가 죄를 지었기 때문에 벌을 받는 것이 아닌가 하는 생각이 들 때가 있다”, 무력감에 대한 문항은 “아픈 아이에게 내가 해줄 수 있는 것이 별로 없다는 생각에 괴로울 때가 있다”의 4개 문항으로 구성하였고, 이는 5점 리커트 형식으로 점수가 높을수록 죄책감이 높음을 의미한다. 본 연구에서 Cronbach's α 값은 0.88 이었다.

4. 자료분석방법

수집된 자료는 SPSS Win 12.0 프로그램을 사용하였고 자료 분석방법은 다음과 같다.

대상자의 양육 스트레스와 죄책감의 정도는 총점과 평균, 표준편차로 분석하고 독립표본 t검정과 일원배치 분산분석으로 차이 검증을 사후검정으로는 Turkey를 통해 분석하였다. 대상자의 양육 스트레스와 죄책감과의 상관관계는 피어슨 상관계수로 분석하였다.

IV. 연구결과

1. 대상자의 일반적 특성

환아의 연령은 학령기인 7~12세가 39.7%로 0~6세보다 약간 더 많았고 남아가 67.3%로 과반수 이상을 차지하였다. 환아의 질병과 관련한 현재 상태는 ‘경’하더라고 응답한 경우가 33.3%였으며, 전체 156명 중 84명인 53.8%가 프레터일리 증후군이었고 진단기간은 2~5년이 52.3%로 가장 많았다. 미코다당체 침착증의 경우 모계유전을 하는 2형의 경우가 43.1% 이었고 상염색체 열성유전을 하는 경우가 56.9% 이었다(표 1).

어머니의 연령은 40세 미만이 62.2%로 과반수 이상이었으며 학력은 고졸 이하가 51.3%로 대졸 이상과 비슷하였다. 대부분이 기혼 상태였고 경제수준에서는 ‘상’이라고 응답한 경우가 없이 중상, 중하, 하로 구분되었으며 ‘중하’라고 응답한 경우가 56.4%로 가장 많았다.

한편, 62.2%의 어머니가 직업이 없는 상태로 가사와 육아를 전담하고 있었으며, 종교는 기독교가 44.2%로 가장 많았다. 가족형태는 89%가 핵가족을 이루고 있었고 25.6%의 어머니가 환아 한 명만 돌보고 있었다. 다음 임신을 희망하는지에 대한 물음에서는 82.7%가 임신을 원하지 않는다고 응답하였고 75%의 어머니들이 부모모임에 가입한 상태였다(표 1).

〈표 1〉 대상자의 일반적 특성

(n=156)

| 변수 | 구분 | 빈도(백분율%) |
|-----------------------|----------------|-----------|
| 연령 | 0~6세 | 51(32.7) |
| | 7~12세 | 62(39.7) |
| | 13세 이상 | 43(27.6) |
| 성별 | 남 | 105(67.3) |
| | 여 | 51(32.7) |
| 환아 질병심각도 | 경 | 52(33.3) |
| | 중등 | 65(41.7) |
| | 중 | 39(25.0) |
| 관련 특성 진단명 | MPS | 72(46.2) |
| | PWS | 84(53.8) |
| 유전형식 | MPS모계유전 | 31(19.9) |
| | MPS상염색체열성유전 | 41(26.3) |
| | PWS 결손형 | 69(44.2) |
| | PWS 비결손형 | 15(9.6) |
| 진단기간 (n=155) | 1년 이하 | 22(14.1) |
| | 2~5년 이하 | 81(52.3) |
| | 6년 이상 | 52(33.5) |
| 연령 | 40 미만 | 97(62.2) |
| | 40 이상 | 59(37.8) |
| 학력 | 고졸 이하 | 80(51.3) |
| | 대졸 이상 | 76(48.7) |
| 결혼상태 | 기혼 | 148(94.9) |
| | 기타(이혼, 사별, 별거) | 8(5.1) |
| 경제수준 | 중상 | 45(28.8) |
| | 중하 | 88(56.4) |
| | 하 | 23(14.7) |
| 직업유무 | 유 | 59(37.8) |
| | 무 | 97(62.2) |
| 어머니 관련 특성 종교 | 기독교 | 69(44.2) |
| | 불교 | 24(15.4) |
| | 천주교 | 16(10.3) |
| | 무교 | 44(28.2) |
| | 기타 | 3(1.9) |
| 가족형태 | 핵가족 | 139(89.0) |
| | 대가족 | 17(11.0) |
| 다른 자녀 유무 | 유 | 116(74.4) |
| | 무 | 40(25.6) |
| 임신회망 여부 | 예 | 27(17.3) |
| | 아니오 | 129(82.7) |
| 부모모임 가입여부 | 예 | 117(75.0) |
| | 아니오 | 39(25.0) |

2. 대상자의 양육 스트레스 정도

Abidin(1995)의 단축형 양육 스트레스 도구를 통한 스트레스 수준을 보면 전체 총점 평균이 97.4점으로 매우 높게 측정되었다. 90점 이상으로 측정된 고위험군은 전체 대상자의 과반수 이상인 62.2%나 차지하였다(표 2).

부모 영역은 평균 35.0점으로 측정되었고 47.4%의 어머니가 고위험군으로 전문가의 도움이 필요한 36점 이상의 점수를 보였다. 부모-아동 관계 영역에서는 평균 29.9점이었고 27점 이상을 보인 고위험군은 전체 대상자의 61.5%였다. 또한 아동영역은 평균 32.5점이었고 36점 이상인 고위험군은 34.6%로 나타났다. 즉, 아동의 기질보다는 부모 역할이나 자녀와의 관계로 인한 스트레스를 경험하는 어머니들이 비교적 많았다.

〈표 2〉 대상자의 양육 스트레스 정도

(n=156)

| 구분 | 총점 | | 평점 | 고위험 군 |
|---------------|--------|------------|-----------|----------|
| | Range | M±SD | M±SD | n(%) |
| 부모영역 | 12~56 | 35.0±9.71 | 2.92±0.81 | 74(47.4) |
| 부모-자녀 관계영역 | 14~51 | 29.9±8.27 | 2.49±0.69 | 96(61.5) |
| 아동영역 | 12~60 | 32.5±10.29 | 2.71±0.86 | 54(34.6) |
| 전체 | 39~164 | 97.4±23.03 | 2.70±0.64 | 97(62.2) |

3. 대상자의 죄책감 정도

죄책감은 총 20점 만점에서 평균 14.4점으로 나타났고, 각 영역에서는 무력감이 4.03점으로 가장 높았고 책임, 탓, 징벌의 순으로 나타났다(표 3).

〈표 3〉 대상자의 죄책감 정도

(n=156)

| 구분 | Range | M±SD |
|-----|-------|-----------------------------|
| 탓 | 1~5 | 3.50±1.32 |
| 책임 | 1~5 | 3.62±1.21 |
| 징벌 | 1~5 | 3.26±1.33 |
| 무력감 | 1~5 | 4.03±1.14 |
| 전체 | 4~20 | 14.4±4.28 (평균:3.60±1.07) |

4. 대상자의 일반적 특성에 따른 양육 스트레스와 죄책감

양육 스트레스는 환아관련 특성에서 환아의 연령과 질병의 심각도에 따라, 어머니관련 특성에서 경제수준에 따라 유의한 차이가 있었다(표 4). 환아 연령 0~6세의 경우 90.8점, 7~12세 경우 101.0점으로 두 구간에 통계적으로 유의한 차이를 보였다(F=

3,208, p=.043). 학령기 아동을 둔 어머니들의 양육 스트레스 수준이 학령전기에 비하여 매우 높게 측정되었다. 질병의 심각도가 '경하다'와 '중등'정도라고 응답한 경우에 각각 87.4, 95.4점으로 측정되었고 이는 '심각한 편이다'의 경우 114.1점과 통계적으로 유의한 차이를 보였다(F=18,953, p=.000). 환아의 상태가 심각할수록 양육 스트레스 수준이 높았다. 경제수준이 '하'인 경우 '중상'과 '중하'에 비하여 유의하게 높았다(F=6,344, t=.002).

<표 4> 대상자의 일반적 특성에 따른 양육 스트레스와 죄책감

(n=156)

| 변수 | 구분 | 양육 스트레스 | | 죄책감 | | |
|---------|--------------------|-----------------|-------------------|-------------|-------------------|------------|
| | | M(SD) | t or F(p) 사후검정 | M(SD) | t or F(p) 사후검정 | |
| 연령 | 0~6세 ^a | 90,8(18,86) | 3,208 | 13,9(4,53) | .633 | |
| | 7~12세 ^b | 101,0(23,08) | (.043*) | 14,6(4,26) | (.532) | |
| | 13세 이상 | 100,0(26,09) | a<b | 14,8(4,03) | | |
| 성별 | 남 | 97,8(23,63) | .367 | 14,7(4,25) | 1,343 | |
| | 여 | 96,4(21,93) | (.714) | 13,7(4,32) | (.181) | |
| | 질병 심각도 | 경 ^a | 87,4(20,41) | 18,953 | 13,5(4,90) | 2,409 |
| 환아 | 중등 ^b | 95,4(20,00) | (.000**) | 14,5(4,06) | (.093) | |
| | 중 ^c | 114,1(22,38) | a,b<c | 15,5(3,53) | | |
| | 관련 | 진단명 | MPS | 96,8(23,06) | -0,301 | 15,1(3,97) |
| 특성 | | PWS | 97,9(23,12) | (.764) | 13,8(4,46) | (.047*) |
| | 유전 | MPS모계유전 | 97,4(25,48) | | 15,8(3,86) | |
| | 형식 | MPS상염색체열성유전 | 95,9(19,77) | .185 | 14,3(4,00) | 2,115 |
| 진단 | | PWS결손형 | 98,6(24,57) | (.907) | 13,7(4,63) | (.101) |
| | | PWS비결손형 | 94,5(14,99) | | 14,1(3,72) | |
| | 기간 | 1년 이하 | 92,8(18,58) | .663 | 15,5(4,10) | .829 |
| (n=155) | | 2~5년 이하 | 97,3(20,37) | (.517) | 14,3(4,12) | (.438) |
| | | 6년 이상 | 99,5(28,36) | | 14,2(4,62) | |
| | 연령 | 40 미만 | 95,3(21,65) | -1,471 | 14,1(4,47) | -1,049 |
| 학력 | | 40 이상 | 100,8(24,93) | (.143) | 14,9(3,94) | (.296) |
| | | 고졸 이하 | 100,7(22,94) | 1,892 | 15,5(3,73) | 3,209 |
| | | 대졸 이상 | 93,8(22,74) | (.060) | 13,3(4,56) | (.002**) |
| 결혼 | 상태 | 기혼 | 96,7(22,42) | -1,505 | 14,4(4,28) | .527 |
| | | 기타(이혼, 사별, 별거) | 109,1(31,95) | (.134) | 13,6(4,44) | (.599) |
| 경제 | 수준 | 중상 ^a | 94,1(22,87) | 6,344 | 12,9(4,32) | 4,172 |
| | | 중하 ^b | 95,0(22,54) | (.002**) | 15,0(4,13) | (.017*) |
| | | 하 ^c | 112,6(19,90) | a,b<c | 15,3(4,15) | a<b,c |
| 직업 | 유무 | 유 | 94,0(20,14) | -1,414 | 14,3(3,82) | .340 |
| | | 무 | 99,4(24,50) | (.159) | 14,5(4,55) | (.735) |
| 종교 | 관련 | 기독교 | 95,5(23,24) | | 13,8(4,86) | |
| | | 불교 | 98,8(24,85) | | 15,6(3,65) | |
| | 특성 | 천주교 | 105,0(20,72) | .577 | 16,1(2,91) | 1,507 |
| | | 무교 | 96,7(23,05) | (.680) | 14,1(3,99) | (.203) |
| | 기타 | 97,7(19,35) | | 14,3(2,08) | | |
| 가족형태 | | 핵가족 | 87,2(23,60) | .230 | 14,6(4,24) | 1,773 |
| | | 대가족 | 98,5(19,07) | (.818) | 12,6(4,26) | (.078) |
| 다른자녀 | 유무 | 유 | 96,7(23,20) | -0,575 | 14,4(4,29) | -.036 |
| | | 무 | 99,2(22,71) | (.566) | 14,4(4,31) | (.971) |
| 임신회망 | 여부 | 예 | 97,8(18,71) | .111 | 14,3(3,70) | -.143 |
| | | 아니오 | 97,3(23,90) | (.912) | 14,4(4,40) | (.886) |
| 부모모임 | | 예 | 97,9(23,69) | .515 | 13,9(4,44) | -2,865 |
| | | 가입여부 | 아니오 | 95,7(21,13) | (.998) | 15,9(3,41) |

* p<.05, ** p<.01

죄책감은 환자관련 특성 중 진단명에 따라, 어머니관련 특성 중 어머니 학력, 경제수준, 부모모임에서 유의한 차이를 보였다(표 4). MPS 어머니군이 15.1점, PWS 어머니군이 13.8점으로 MPS 어머니군의 죄책감 정도가 높았다($t=2.005, p=.047$). 학력이 고졸 이하의 어머니들이 대졸 이상에 비하여 통계적으로 유의미하게 높은 점수를 보였다($t=3.209, p=.002$). 경제수준이 낮을수록 높은 점수를 보였는데 ‘중상’의 경우보다 ‘중하’와 ‘하’라고 응답한 경우에 높았다($F=4.172, p=.017$). 부모모임 가입여부에 따라 가입한 어머니들에는 가입하지 않은 어머니들에 비하여 통계적으로 유의하게 죄책감 정도가 낮았다($t=-2.895, p=.005$).

5. 대상자의 양육 스트레스와 죄책감과의 상관관계

양육 스트레스와 죄책감은 부모-자녀관계 영역과 죄책감 하위영역인 탓영역과의 관계를 제외한 모든 영역에서 각각 정적 상관관계를 보였다(표 5). 특히, 양육 스트레스 중 부모영역과 죄책감과의 관계가 가장 강한 정적 상관관계임이 확인되었으며($r=0.514, p=.000$), 죄책감 중에는 책임 영역이 가장 강했다($r=0.516, p=.000$).

〈표 5〉 대상자의 양육 스트레스와 죄책감의 상관관계

| 구분 | 부모영역 | 부모-자녀 관계영역 | 아동영역 | 전체 양육 스트레스 |
|--------|-------------------|-------------------|-------------------|-------------------|
| 탓 | 0.306 (.000**) | 0.088 (.275) | 0.194 (.015*) | 0.248 (.002**) |
| 책임 | 0.516 (.000**) | 0.246 (.002**) | 0.312 (.000**) | 0.445 (.000**) |
| 징벌 | 0.480 (.000**) | 0.274 (.001**) | 0.274 (.001**) | 0.423 (.000**) |
| 무력감 | 0.466 (.000**) | 0.336 (.000**) | 0.356 (.000**) | 0.476 (.000**) |
| 전체 죄책감 | 0.514 (.000**) | 0.271 (.001**) | 0.328 (.000**) | 0.461 (.000**) |

* $p<.05$, ** $p<.01$

V. 논 의

희귀유전대사질환 아동 어머니의 양육 스트레스를 살펴본 결과 그들의 양육 스트레스 정도는 매우 높았다. 이를 같은 도구를 이용한 국내외 타 연구들과 비교해 보면 먼저 선천성 심장

병 환자의 부모를 대상으로 한 연구(Uzark, & Jones, 2003)에서는 총 180점 만점에서 평균 77.0점이었고, Duchenne 근육병 환자의 어머니를 대상으로 한 연구(Nereo, Fee, & Hinton, 2003)에서는 81.22점, 아토피 피부염 환자 어머니를 대상으로 한 연구(유일영과 김동희, 2004)에서는 77.25점으로 측정된 것에 비하여 본 연구에서는 97.4점으로 매우 높은 스트레스를 경험하고 있는 것으로 나타났다. 선천성 심장병과 아토피 피부염의 경우 만성질환이기는 하나 수술이나 완화요법으로 상태가 호전될 수 있고, 근육병의 경우는 지체장애를 가지고 있지만 정신지체는 흔하지 않다. 이에 반해 본 연구 대상인 MPS나 PWS라는 질환은 상태가 호전되기 보다는 진행성을 보이며 정신지체를 동반하는 경우가 흔하다. 이는 희귀질환 아동을 둔 부모의 스트레스 연구에서 행동장애와 진행적인 장애를 가진 아동의 부모들이 그렇지 않은 부모들에 비하여 매우 높은 스트레스 수준을 보였다고 한 Dellve 등(2006)의 연구결과를 뒷받침하는 것으로 보인다.

도구를 개발한 Abidin(1995)은 측정치가 90점 이상일 때 전문가의 도움이 필요하다고 하였는데, 본 연구결과에서 62.2% 즉, 과반수 이상이 90점 이상의 높은 점수를 보였다. 심장질환 아 부모 대상의 연구(Uzark, & Jones, 2003)에서는 17.5%가, Duchenne 근육병 환자 어머니(Nereo 등, 2003)에서는 33%가 90점 이상을 보인 반면 본 연구결과에서의 62.2%는 매우 많은 대상자들에게 전문가의 도움이 필요함을 알려주고 있다. 그러나 실제 양육 스트레스를 감소시킬 수 있는 구체적인 프로그램이나 전문가가 없는 것이 국내 현실이다. 따라서 이들을 위한 전문적인 중재방안이 하루 빨리 개발되어야 할 뿐만 아니라 이러한 역할을 담당할 전문인 양성 또한 시급한 것으로 보인다.

양육 스트레스를 영역별로 살펴보면, 부모영역에서는 47.4%의 어머니가 부모 역할 적응에 문제가 있다고 보여지는 36점 이상이었으며 부모-자녀의 역기능적 상호작용 측면에서도 과반수 이상인 61.5%의 어머니가 불안정한 애착형성을 의미하는 수준인 27점 이상으로 나타났다. 그에 반해 아동의 까다로운 기질 측면에서는 34.6%만이 높은 수준의 스트레스를 느끼는 것으로 나타났다. 즉, 아동의 기질보다는 부모 역할이나 자녀와의 관계로 인해 느끼는 스트레스가 비교적 많다는 것으로 평가할 수 있다. 김효동(2004)은 부모교육을 했을 때 ‘부모 영역(자기고통영역)’과 ‘부모-자녀 관계 영역’의 스트레스가 유의하게 감소한 반면 ‘자녀의 까다로운 기질로 인한 영역’은 변화가 없었다고 하였다. 마침 본 연구결과는 ‘부모 영역’과 ‘부모-자녀관계 영역’에서 높은 스트레스를 경험하고 있는 대상자들이 많으므로 향후 이러한 부모교육을 효과적으로 실시한다면 양육 스트레스를 의미 있게 감소시킬 수 있을 것으로 기대한다. 다행히 본 연구 대상자의 어머니들은 정기적인 부모모임을 하고 있고 전문 간

호사가 이를 지원하고 있기 때문에 부모교육을 시행할 수 있는 매우 좋은 조건이라 생각된다. 이를 위하여 앞으로 간호사는 다각적인 중재방안을 모색하고 효과적인 부모교육을 위한 내용 개발에도 힘을 기울여야 할 것이다. 또한 이러한 과정에서 중추적 역할을 담당해야 할 간호사의 역할은 매우 중요하다고 할 수 있겠다.

대상자의 일반적 특성에 따른 양육 스트레스는 아동의 연령, 질병의 심각도, 경제수준에서 유의한 차이를 보였다. 먼저, 학령기 아동의 경우가 학령전기에 비하여 양육 스트레스 수준이 높았다. MPS는 아이의 연령이 증가할수록 질병의 상태가 진행되고 PWS는 6세가 지나면서 아이의 행동장애와 비만이 현저해지는데, 이러한 특성으로 인하여 나이 어린 아동의 어머니보다 학령기에 접어든 아동의 어머니들이 양육 스트레스를 더욱 경험하고 있다고 해석된다. 한편, 이러한 결과는 정상아동을 둔 어머니의 양육 스트레스에서 자녀가 어릴수록 양육 스트레스가 높았다고 한 연구결과(김미숙, 2005)와 상반된 결과이며 장애아동을 둔 어머니는 학령전기 아동보다 학령기 아동 어머니의 스트레스가 높았다고 한 연구결과(이한우, 2002; Macias 등, 2003)와 일치한다. 즉, 장애아동의 어머니는 정상아동의 어머니와는 달리 아이의 연령이 높을수록 스트레스 수준도 높아지는데 이는 아이가 자라면서 신체적·정신적·사회적으로 요구되는 기준에 미치지 못하고 상태가 호전되기 보다는 진행되는 장애의 특성에서 온 결과로 보인다.

질병의 심각도에 따른 양육 스트레스는 상태가 안 좋을수록 스트레스 정도가 높았다. 이러한 결과는 질병을 가진 아동 부모의 양육 스트레스를 다룬 다수의 연구 결과(이재혁, 2005; 이한우, 2002)들과 일치하고 있다. 역시, 환자의 건강 상태가 양육 스트레스에 영향을 주는 가장 큰 요인으로 생각된다. 따라서 의료진은 질병의 치료와 증상완화에 더욱 힘을 기울여야 할 것이며, 환자 간호에 도움이 되는 대처기술을 교육하는 것도 또한 매우 중요하겠다.

경제수준에 따른 양육 스트레스는 경제수준이 '하' 라고 응답한 경우에 가장 높은 양육 스트레스를 보였고 이는 대부분의 연구(이재혁, 2005; Johnston 등, 2003)결과와도 같다. MPS 아동은 여러 가지 장애와 점차 진행되는 질병특성으로 인하여 입원 등 잦은 병원치료가 요구되며, PWS 아동은 비만과 저신장 치료를 위하여 고가의 성장호르몬 주사를 매일 맞고 있고 운동, 작업, 언어, 특수치료 등 여러가지 재활 치료를 받고 있어 사실상 이러한 어머니들은 치료비와 사교육비 등으로 많은 경제적 부담을 가지고 있다. 보건복지부는 2001년부터 희귀난치성 질환자를 위한 의료비 지원 사업을 시행하고 있으나 대상자와 규모가 한정되어 있기 때문에 아직까지 많은 부모들이 경제적 부담을 갖고 있는 것이 현실이다. 사회적 지원이 양육 스

트레스를 낮출 수 있는 큰 영향요인이라는 사실을 많은 연구(이해석, 2004)를 통해 알 수 있듯이, 희귀유전대사질환 가족의 경제적 부담을 낮출 수 있는 현실적인 지원과 복지 서비스 등이 국가적 차원에서 더욱 마련되어야 할 것으로 사료된다. 더불어 간호사는 지역사회나 정부기관의 지원체계, 자원봉사단체 등 이용 가능한 자원에 대한 많은 정보와 지식을 소유하고 있어야 하며 이에 대한 정보를 적절히 제공할 줄 알아야 한다.

본 연구에서는 양육 스트레스 외에 아픈 자녀를 양육하면서 느끼는 어머니의 심리적 반응 중의 하나인 죄책감에 대하여 구체적으로 살펴보았다. 본 연구자가 개발한 죄책감 도구를 통해 평균평점이 5점 만점에서 3.60점으로 측정되었는데, 이는 양육 스트레스 영역에서 보인 평점 2점대에 비하여 매우 높은 점수임이 확인되었다. 또한 죄책감을 탓, 책임, 징벌, 무력감 등 총 4가지의 큰 개념으로 범주화 하여 측정된 결과 무력감이 가장 높았다. MPS와 PWS의 경우 아동의 질병상태가 진행되는 특성과 함께 치료가 불가능한 유전형질을 물려주었다는 점 등으로 인해 무력감 즉, 해줄 수 있는 것이 없어 괴롭다는 응답이 더욱 많았던 것으로 보인다. 그 외 책임, 탓, 징벌 영역 또한 평점 3점대로 높게 측정되었는데 이는 유전질환 가족의 어머니들이 죄책감을 많이 느낀다고 했던 연구결과(James 등, 2006; Skirton, 2006)를 지지하는 것으로 보인다.

한국인에게서는 자신의 불행을 스스로의 운명이나 여건에 귀인 시킴으로서 심리적 안정을 찾는 심리기제 통제가 잘 발달되어 있다. 특히, 탓의 심리기제가 잘 발달되어 있는데 탓은 민족의 민속학적 영역에 무속과 종교의 개념에 뿌리깊이 존재하는 개념으로서 기대하건 기대하지 않건 확정되지 않은 일의 결과에서 순간적으로 조화를 이루기 위한 수단으로 존재한다(김분한, 1990). 본 연구의 죄책감에서 책임, 탓, 징벌 등은 이와 같은 한국인의 심리에서 자연스럽게 도출된 것으로 특히, 아픈 자녀를 둔 어머니의 심리에서 쉽게 찾을 수 있는 개념으로 보인다. 국내 많은 학자들이 유전질환 외에도 질병을 가진 아동의 부모들이 죄책감을 경험하고 있다고 언급하고 있는데(김봉년, 2005; 박혜영, 2000; 이광선과 신정은, 2003) 본 연구의 죄책감에 대한 수치화된 결과는 이를 객관적으로 증명해 보인 처음의 연구결과라는 데 의미가 있다고 사료된다. 하지만, 아직 미비한 점이 많아 향후 질적 연구를 통해 더욱 알찬 내용으로 보충이 이루어진다면 아픈 자녀를 둔 부모의 죄책감을 객관적으로 설명할 수 있는 더욱 훌륭한 도구로서 활용될 수 있을 것으로 기대한다.

대상자의 일반적 특성에 따른 죄책감은 환자의 진단명, 어머니의 학력, 경제수준, 부모모임 가입여부에 따라 통계적으로 유의한 차이를 보였다. 먼저 환자의 진단명에 따라 살펴본 결과, MPS어머니들이 PWS어머니들에 비하여 죄책감을 많이 느

끼는 것으로 나타났다. MPS의 유전형식을 살펴보면, 모계 유전인 2형 헌터증후군의 경우 국내에 가장 많은 빈도수를 차지하는 것으로 조사되었고, 나머지는 상염색체 열성 유전을 한다(송승미, 2001). 이는 아버지의 한쪽 유전자를 받지 못해 생기지만 되물림 하지 않는 PWS의 유전양상과 매우 다르다. 이러한 결과는 모계 유전형식을 가진 어머니들이 죄책감을 많이 표현하였다고 기술한 연구들(Gagliardi, 1991; James 등, 2006)을 지지하는 것으로서 본 연구결과 역시 이 유전형식이 영향을 주었을 것으로 생각된다. 그러므로 되물림 되는 유전대사질환 아동을 둔 어머니들을 상담하는 간호사는 이러한 심리적 특성을 더욱 잘 이해할 필요가 있겠다.

어머니의 학력에서는 대졸 이상보다 고졸 이하의 어머니들이 높은 죄책감을 경험하고 있었고 경제수준이 낮을수록 죄책감 수준이 높았다. 이러한 결과는 교육과 경제수준이 낮은 어머니들에게 더욱 세밀한 관심을 기울일 필요가 있음을 다시 한 번 시사한다.

마지막으로 부모모임에 가입하지 않은 어머니들이 가입한 어머니들에 비하여 죄책감에서 높은 점수를 보였다. 이는 부모모임을 통하여 서로 정보를 교환하고 정서적으로 지지하는 부분에서 죄책감이 감소한 것으로 보인다. 자녀의 유전질환 검사결과를 기다리고 있는 어머니들에게 전문가에게 듣는 추가적인 정보와 설명, 정신적 지지가 매우 도움이 되었다고 한 Skirton(2006)의 연구결과와 발달장애아동 어머니들이 심리사회적으로 적응하는데 지지집단이 매우 필요한 것으로 파악되었다는 오승혜(1998)의 연구결과를 지지한다. 따라서 부모모임을 통해 어머니들에게 질병에 대한 정확한 이해와 정보를 제공할 뿐만 아니라 지속적으로 정서적 지지를 제공하는 것이 이들의 죄책감을 감소시킬 수 있는 하나의 중재방안이 될 것으로 사료된다. 또한 이러한 역할을 담당하게 될 간호사는 부모모임이라는 지지집단에 대한 적극적인 홍보와 가입을 격려하는데 있어 지속적인 노력을 기울일 필요가 있다.

양육 스트레스와 죄책감과의 상관관계에서 양육 스트레스가 높을수록 죄책감도 높아짐을 알 수 있었는데 특히, 죄책감은 부모 영역과 가장 강한 정적 상관관계를 보였고 죄책감 중 책임 영역에서 가장 강한 정적 상관관계임을 알 수 있었다. 이러한 결과는 죄책감이 양육 스트레스 중 부모의 정신적 스트레스의 한 영역으로도 충분한 의미가 있다는 것을 시사한다. 그러므로 희귀유전대사질환 아동을 둔 어머니들에게 간호를 제공할 시에는 반드시 죄책감을 포함한 정신적 스트레스를 이해하고 사정하는 것이 필요하겠다.

지금까지 논의를 통해 살펴본 결과, 희귀유전대사질환 아동을 둔 부모는 희귀함에서 오는 사회적 소외감과 만성질환 및 진행적인 장애를 가진 아동의 양육으로 인한 생활상의 고통뿐

만 아니라 치료나 변경이 불가능한 유전형질을 자녀에게 물려주었다는 점 등의 이유로 그 어떤 질환에 비하여 양육 스트레스와 죄책감 정도가 높은 것으로 사료된다. 그러므로 희귀유전대사질환 아동과 그 가족을 돌보는 간호사는 그들의 양육 스트레스와 죄책감을 충분히 이해하고 가족의 적응을 돕는 상담가로서 부모의 스트레스와 죄책감을 완화시키기 위한 간호중재를 개발하고 적용하는 것이 매우 필요하겠다.

VI. 결론 및 제언

본 연구는 희귀유전대사질환 아동 어머니들의 양육 스트레스와 죄책감 정도를 확인하고 각 변인과의 상관관계를 살펴봄으로써 이를 통해 환아와 그 가족에 대한 이해를 돕고 스트레스와 죄책감을 완화시킬 수 있는 방안을 모색하여 간호중재 개발에 기초적인 도움이 되고자 시도된 서술적 상관성 조사연구이다.

연구대상은 소아연령에서 볼 수 있는 대표적 희귀유전대사질환 중 뮤코다당체 침착증 혹은 프레더윌리 증후군으로 진단 받은 자녀를 양육하고 있는 어머니로 2006년 2월에서 7월까지 자료수집이 이루어졌고 총 156부의 설문지가 결과 분석을 위한 자료로 사용되었다. 수집된 자료는 SPSS win 12.0 프로그램을 이용하여 분석하였다. 본 연구는 사전에 국제 공인을 받은 S병원 IRB(임상시험심사위원회)에 정식 승인을 받았다(IRB File No: 2006-02-014).

본 연구결과를 통해 희귀유전대사질환 아동을 둔 어머니들의 양육 스트레스가 매우 높은 수준임을 확인할 수 있었고, 죄책감 역시 매우 높은 수준임을 확인하였다. 또한, 양육 스트레스와 죄책감의 각 영역은 거의 모두 정적 상관관계를 보였다.

따라서 희귀유전대사질환 아동과 그 가족을 돌보는 간호사는 그들의 양육 스트레스와 함께 죄책감을 충분히 이해해야 하며 가족의 적응을 돕는 상담가로서 부모의 스트레스와 죄책감을 완화시키기 위한 간호중재를 개발하고 적용하는 것이 매우 필요하겠다.

본 연구는 그 동안 주로 의학적 연구들만 보고되었던 희귀유전대사질환에 대하여 그 가족을 대상으로 시행된 처음의 간호학적 연구라는 점에서 그 의미가 있다. 이러한 연구 결과가 희귀유전대사질환 아동과 그 가족을 돌보는 간호사들에게 이해의 폭을 넓히는데 도움을 줄 뿐만 아니라 양육 스트레스와 죄책감을 완화시킬 수 있는 적절한 상담과 교육 프로그램을 개발하는데 있어 기초적인 도움이 될 수 있을 것으로 기대한다.

본 연구의 결과를 토대로 희귀유전대사 질환아 가족의 특성을 반영한 양육 스트레스와 죄책감을 완화시킬 수 있는 주요 변인들을 추출하고 그 인과관계를 확인하기 위한 요인관련 및

요인생성수준의 연구가 필요하다. 또한 이를 통해 향후 적절한 상담과 교육 프로그램의 개발이 이루어지고 그 효과를 살펴 볼 상황생성 이론수준의 연구도 제안한다.

참고문헌

- 강시열(2001). 가정 환경과 아동 변인에 따른 시각장애아 부모의 양육 스트레스와 대처 행동에 관한 연구. 대구대학교 석사학위논문, 대구.
- 김미숙(2005). 어머니의 양육 스트레스와 양육 효능감이 양육 행동에 미치는 영향-유아기와 학령기 자녀를 둔 어머니를 대상으로. 가톨릭대학교 석사학위논문, 서울.
- 김봉년(1990). 귀인이론과 탓에 대한 비교연구. *최신의학*, 33(1), 143-152.
- 김봉년(2005). 아토피 자녀를 둔 부모를 위한 자녀교육 5계명. 아토피와 싸우는 천사들. 2005.12.23, <http://www.atopyangel.org/>에서 인출
- 김효동(2004). 부모교육이 장애학생 부모의 자아개념과 양육 스트레스에 미치는 효과. 단국대학교 석사학위논문, 천안.
- 박혜영(2000). 구순, 구개열 아동 및 가족의 심리사회적 문제와 그 대처방안(3). *빅스마일회보*, 3월호, 2006.1.2, <http://bigsmile.interpia98.net/12-1.htm>에서 인출
- 백혈병어린이후원회(1998). *자녀가 앞에 걸렸을 때 (견디기 힘든 감정에 대처하기)*. 한국백혈병어린이재단. 서울: 저자.
- 서혜영(1991). *장애아 어머니의 적응과 사회적 지원에 관한 연구*. 연세대학교 석사학위논문, 서울.
- 송승미(2001). *뮤코다당체 침착증 환자에서 임상양상과 검사소견의 특징*. 성균관대학교 석사학위논문, 서울.
- 와이비엠시사 편집국(2006). *엘리트 국어사전*. 서울: 와이비엠시사.
- 오승혜(1998). 발달장애아동 어머니들의 심리사회적 적응을 위한 지지집단프로그램에 관한 연구. 가톨릭대학교 석사학위논문.
- 유일영, 김동희(2004). 아토피 피부염 환자 어머니의 양육 스트레스와 간호연구. *아동간호학회지*, 10(4), 423-430.
- 이광선, 신정은(2003). 고도난청아 부모의 심리변화. *서울아산병원 이비인후과 의학칼럼*. 2006.1.2, <http://amc.seoul.kr/dept/bbs/>에서 인출
- 이숙영(2002). *암환아 부모의 스트레스와 가족기능에 관한 연구*. 이화여자대학교 석사학위논문, 서울.
- 이영호(2000). *장애아동 부모 어떻게 도와 것인가-부모능력 개발과 성장을 위한 부모교육 Workbook-*. 서울: 학문사.
- 이재혁(2005). *장애아 어머니의 양육 스트레스와 삶의 질에 관한 연구*. 중앙대학교 석사학위논문, 서울.
- 이한우(2002). *발달장애아동 가족지원 특성과 부모의 양육스트레스 연구*. 대구대학교 박사학위논문, 대구.
- 이해석(2004). *희귀난치성질환자의 사회복지적 지원체계 수립방안에 관한 연구*. 한일장신대학교 석사학위논문, 전북.
- 진동규(2006). 희망의 언덕에 서서. *한국 MPS 환우회 회보*.
- 한국보건사회연구원(2002). *희귀난치성 질환자 관리사업의 영향평가와 발전방안 연구*. 서울: 저자.
- 한국희귀의약품센터(2000). *희귀의약품 소식*. 한국희귀의약품, 봄(창간호), 5.
- 홍강의(1986). 장애아 부모의 심리와 치료 교육, 41-42. 한국정서학습장애아교육학회.
- Abidin, R. (1995). *The Parenting Stress Index* (3rd ed.). FL: Psychological Assessment Resources.
- Dellve, L., Samuelsson, L., Tallborn, A., Fasth, A., & Hallberg, L. R. (2006). Stress and well-being among parents of children with rare diseases: A prospective intervention study. *Journal of Advanced Nursing*, 53(4), 392-402.
- Gagliardi, B. A. (1991). The family's experience of living with a child with Duchenne muscular dystrophy. *Applied Nursing Research*, 4, 159-164.
- Hassall, R., Rose, J., & McDonald, J. (2005). Parenting stress in mothers of children with an intellectual disability: The effects of parental cognitions in relation to child characteristics and family support. *Journal of Intellectual Disability Research*, 49(6), 405-418.
- James, C. A., Hadley, D. W., Holtzman, N. A., & Winkelstein, J. A. (2006). How does the mode of inheritance of a genetic condition influence families? A study of guilt, blame, stigma, and understanding of inheritance and reproductive risks in families with X-linked and autosomal recessive disease. *Genetics in Medicine*, 8(4), 234-242.
- Johnston, C., Hessel, D., Blasey, C., Eliez, S., Erba, H., Dyer-Friedman, J. et al. (2003). Factors associated with parenting stress in mothers of children with fragile X syndrome. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 24(4), 267-275.
- Macias, M. M., Saylor, C. F., Rowe, B. P., & Bell, N. L. (2003). Age-related parenting stress differences in mothers of children with spinal bifida. *Psychological*

- Reports*, 93(3pt2), 1223-1232.
- Nereo, N. E., Fee, R. J., & Hinton, V. J. (2003). Parental stress in mothers of boys with Duchenne muscular dystrophy. *Journal of Pediatric Psychology*, 28(7), 473-484.
- Skirton, H. (2006). Parental experience of a pediatric genetic referral. *The American Journal of Maternal Child Nursing*, 31(3), 178-184.
- Uzark, K., & Jones, K. (2003). Parenting stress and children with heart disease. *Journal of Pediatric Health Care*, 17(4), 163-8.
- Wigren, M., & Hansen, S. (2003). Prader-Willi syndrome: Clinical picture, psychosocial support and current management. *Child Care, Health and Development*, 29(6), 449-456.

Parenting Stress and Guilty Feeling for Mothers Having Children with Rare Genetic Metabolic Diseases

Kwon, Eun Kyung¹⁾ · Choi, Mi Hye²⁾ · Kim, Su Kang³⁾

1) RN, Samsung Medical Center

2) Professor, Department of nursing, Chung-Ang University

3) Researcher, The Research Institute of Nursing Science, Chung-Ang University

Purpose: The purpose of this research, using descriptive correlation design was to identify the extent to which the mothers having children with rare genetic metabolic diseases(MPS, PWS) have parenting stress and guilt feeling. **Method:** This study used PSI /SF(Abidin, 1995) and Guilt Index as devised herein. From 156 mothers, data were collected from February to July 2006, using self-administered questionnaires. This study received the approval from IRB at S Hospital (IRB File No: 2006-02-014). Data were analyzed with descriptive statistics, t-test, ANOVA, and correlation. **Results:** Mothers felt very high level of parenting stress and sense of guilt. Parenting stress was related positively to guilt feeling. **Conclusion:** These findings could help understand the families of children with rare genetic metabolic diseases and those provide basic information in developing effective counseling and education programs for relief of parenting stress and guilt feeling. This study would be significant in the fact that it is the first research, targeting on the families of children with rare genetic metabolic diseases in Korea.

Key words: Parenting, Stress, Guilt, Children, Genetic disease, Rare disease

Corresponding author: Kwon, Eun Kyung.

Samsung Medical Center.

50, Ilwondong, Kangnamgu, Seoul 135-710, Korea

Tel: 82-2-3410-3757, E-mail: kekcs@skku.edu