

罕見疾病家庭的壓力源： 一項探索式的質化研究

唐先梅

空中大學生活科學系副教授

曾敏傑

臺北大學社工系副教授

本研究建構在家庭系統理論與家庭壓力理論的基礎，分析罕見疾病家庭所面臨的壓力來源，並採質化研究中的「焦點團體」及「深入訪談」進行資料收集。研究發現罕病家庭主要壓力來源包括：(1) 來自疾病診療複雜的壓力 (2) 因為疾病照顧困難的壓力 (3) 擔心病童個人發展的壓力 (4) 面對家庭資源困境的壓力 (5) 承受社會排斥的壓力 (6) 家庭系統改變的新壓力等六項。此外，本研究也發現罕見疾病家庭的壓力源是一個動態發展的歷程，單一理論無法完整透視罕病家庭的壓力源，而罕見疾病的差異也使家庭所面對的壓力源有所不同，並使得母親承受較多來自家庭內部的生活照顧壓力，而父親則面對較多尋求家庭外部資源的壓力。

關鍵詞：罕見疾病、罕見疾病患者、身心障礙者、壓力

前言

醫界對於臨床上極少發現的疾病稱之為罕見疾病，這類疾病多數係由於父母雙方的先天隱性基因缺損所致，又由於夫妻雙方同時帶有相同缺損基因的機率極低，也因此臨床上不易發現這類病人。而對於人數稀少的罕病患者而言，由於人數極少，也使得其需求的藥物因缺乏市場與利潤誘因，以致藥商缺乏意願研發、生產、與引進，而被稱為無人搭理的「孤兒藥」。雖然罕病患者面臨的困境並非只是藥物的取得，但是罕病稀少性導致的孤兒藥議題卻最早得到各國的關注，而各國對於孤兒藥的定義也較為明確。例如美國於 1983 年通過的孤兒藥法案，即主要透過允許市場獨占七年的方式，獎勵藥商投入研發罕見疾病患者所需的藥物，而只要藥品治療的對象於美國境內少於「二十萬人」，即符合該項法案獎勵孤兒藥的資格（葉秀珍、曾敏傑、林志鴻，2002:36-41）。

相對以疾病人口作為孤兒藥認定標準，各國對於罕見疾病的認定則較為複雜，也無法以疾病人口等單一客觀指標加以認定，主要原因是各國國情、財政、社會發展歷程並不相同（葉秀珍、曾敏傑、林志鴻，2002:71-72）。我國於 2000 年通過「罕見疾病防治及藥物法」後，在目前實務上係以疾病盛行率萬分之一以下為參考指標，並採用「罕見、遺傳性、診治上有困難」等三項指標聯合認定我國的罕見疾病（行政院衛生署國民健康局婦幼組，2004:402）。

雖然我國對於罕病已有立法，但社會大眾對於罕病的印象則多來自媒體，而學術界也因罕病案例接觸不易，而無法進行系統性的研究，但是由於病患於出生起便面臨死亡的威脅（李明亮，2004:2），同時由於基因或染色體的缺陷使得多數罕病仍無法有效治癒（參見趙美琴，2004:371），疾病的複雜性及嚴重性往往也

更甚於一般的身心障礙，如 2002 年時的調查顯示，約有 34%罕病患者智力有障礙、78%持有全民健保重大傷病卡（參見林志鴻、曾敏傑，2004），均使得病患所依賴的「家庭」也因此承擔重大壓力。由於國內對於罕病家庭的現況及困境了解有限，而罕病的特殊性也使得研究者無法僅從身心障礙去推論他們所面臨的壓力，因而有賴檢視罕病照護者的生活經驗與感受，如此方能深入理解；本研究因此擬透過深入訪談及焦點訪問，探索了解罕病家庭面對的壓力源，以作為未來進一步研究的基礎，也作為政策與實務上的參考依據。

理論與文獻回顧

本研究擬從家庭系統理論（family systems theory）與家庭壓力理論（double ABC-X model）的觀點為架構，用來分析罕病家庭所面臨的壓力。Brown, Eckman, Sharpe 和 Thompson（1994）曾指出，當家中有重症病童時，家庭將面臨重大的危機，因此從家庭系統模型的架構切入，將有助於了解家人間的相互影響。而 Wood（1993）則提出生物行為家庭模型（a biobehavioral family model）來解釋家有病童所造成的家庭失調時，也同樣強調家庭互動的機制及系統的概念。事實上，家庭系統理論源自一般系統理論（general system theory），而用在解釋家庭現象時，主要是著重以個人與家庭成員間的互動來討論家庭動態、組織、及過程（周麗端、吳明燁、唐先梅、李淑娟，1999）。

在家庭系統中，這些成員關係密切，也不停的互動並相互影響，因而形成一個系統。而家庭中也因角色與互動的特質不同而形成所謂的「次系統」，如夫妻、親子、手足三種關係可說是家庭中最常見與重要的次系統。家庭中的次系統彼此關連、互動，而互動的結果不僅是影響該次系統，也可能影響到未涉入互動

的其他次系統 (Day, 1995)。例如家人在家務的安排會因家有長期的病患而有改變 (程子芸, 1996), 丈夫增加子女的照顧不僅可增加親子的互動, 更可因此減輕妻子的罪惡感 (Clements, Copeland, & Loftus, 1990)。顯見當家中有一罕病病童時, 家庭內的婚姻關係、親子關係、及手足關係也將產生一些改變、衝突、與壓力, 這也正是本文擬進一步了解之處。

此外, 家庭也是一個「規則」管理的系統, 這些規則中有些是公開的, 有些規則是隱藏的。每個人在家庭中都要學習什麼是被允許的、被期待的, 而什麼是被禁止的、被控制的。但當家中有一生病子女時, 有些規則將可能重新訂定或給予特例, Feeman 和 Hagen (1990) 即指出父母對子女的感覺與期望會因子女是否患有長期疾病而不同, 而這也可能使其他家庭成員不滿, 甚至增加家庭中的衝突與壓力。綜合而言, 在家庭系統的架構與概念中, 家庭成員與家庭成員間的互動是不可分割的, 因而家中若有某一成員是罕病患者時, 其影響的絕非病患個人, 也意味著家庭系統內的互動可能改變。

雖然家庭系統理論提供了解家人關係與互動的完整圖像, 但是家庭除了受家庭內的家庭成員及成員間互動的影響外, 也無可避免的受到整個生態系統 (ecosystem) 的影響, 換句話說, 生態系統中任何一部份的改變, 往往給家庭帶來壓力, 甚而產生衝擊與改變。Bernstein (1997) 即指出, 從單一觀點來了解家中有長期病患的影響是不夠的, 同時考慮個人、家庭及社會不同層面的影響與互動性, 才能更完整的了解這些家庭的真正狀況。也因此過去針對身心障礙的研究中, 亦發現當家中有一長期患者需要照顧時, 除了直接影響到照顧者 (多為母親) 的心理及生活安排, 更影響到其他家人的關係及與社會關係的互動 (Nolan, Grant, & Keady, 1996), 因此疾病所帶來的影響將不僅

限於家庭中的病患或個別成員, 也應同時考慮病患個人對家庭與社會層面的整體影響 (Wood, 1993)。

ABC-X 家庭壓力理論中除了提供社會層面因素的思考, 後期的理論更加入時間的脈絡, 提供了另一觀點來直接切入解釋家庭壓力的事件與來源。家庭壓力模式 (Hill, 1958) 中, 認為凡會造成家庭系統中界域、結構、目標、角色、過程、價值等改變的都稱為壓力事件或壓力源 (McKenry & Price, 1994)。Boss (1988) 也強調壓力源事件 (stressor event) 的發生最為顯著的影響是引起家庭系統的改變, 而“壓力”則是隨著家庭系統的改變而產生的反應。McKenry 與 Price (1994) 曾指出對於家庭的壓力事件大致可分成可預期 (predictable) 與不可預期 (unpredictable) 兩種。可預期的家庭壓力事件多半是來自家庭內部, 是家庭發展中生活的一部份; 不可預期的壓力事件則多半來自家庭外部, 非家庭發展的一般歷程, 發生非來自自意志的, 是突然的、急性的、偶發性的, 或是強烈的, 這些不可預期的壓力事件則常給家庭造成比可預期的壓力事件更大的衝擊, 而使得家庭系統失去平衡狀態 (Boss, 1988; McKenry & Price, 1994)。而罕見疾病可說是很少發生, 不只一般醫生容易失誤, 民眾更無法了解, 加以其遺傳性疾病可以說全是隱性的, 因此對於家人來說是突如其來的, 很難被接受 (李明亮, 2004:2); 由於罕病的發現多是屬於突然、非意志、急性、強烈、不常會發生的事件, 也因此得知孩子患有罕見疾病可說是非預期的壓力事件, 對家庭帶來的衝擊也較可預期的壓力事件來的大。

在增加了家庭壓力累積的「時間系列」後的雙 ABC-X 模型中, 所強調的是單一的壓力事件, 往往不會對家庭產生致命性傷害, 而是第一次發生的壓力事件, 加上一連串的困難, 形成壓力的累積重疊, 才會較容易使家庭系統

失去平衡 (McCubbin, Patterson, & Wilson, 1981)。以罕病患者的家庭而言, 疾病本身並不一定會對家庭產生最大影響, 但從發病、確診的困難、照顧的經濟困境與人力耗竭, 以及成長過程中就學、就業、就養等不同時間壓力事件的產生與累積, 才使罕病家庭面對極大的壓力。對罕病家庭而言, 這是一連串長期壓力的歷程, 實非單一事件的挑戰所可比擬。

家庭系統理論建構詳細的家庭成員的組織、動態與過程的基本概念, 用以了解家庭內部的互動情形; 而家庭壓力理論則提供不同層面的家庭壓力源事件以及時間脈絡下的壓力累積觀點。本研究在從該兩項理論關照罕病家庭面對的壓力時, 不僅將從個人、家庭、與社會影響的角度切入, 也將包括時間脈絡對壓力累積的概念, 以期更多面向的了解罕病家庭的壓力來源。

罕病議題在國內開始獲得重視約開始於1998年, 主要受媒體報導引發重視, 但在研究上卻因案例接觸不易, 而無法深入對罕病病患與家屬進行學術研究。而國內外探究家中有長期病患時, 家庭所面臨的壓力與困境, 也多以一般身心障礙者為主要對象, 關注的焦點大致可從身心障礙者個人、家庭、及社會支持三個向度切入。如在身心障礙者個人方面, 國內研究多將重心放在疾病症狀對父母壓力的影響 (如林琦華、蔡芸芳、陳月枝、黃美涓, 2005; 陳季員、鍾育志, 2006; 程子芸、陳月枝, 1998), 而對於長期患病的病童對家庭帶來可能的影響則較少被討論。Cotgreave 和 French (1999) 曾指出, 身心障礙者為未成年子女時, 其個人在面對學習及就學過程中, 往往遭遇到較多的困難, 對自我的信心也較低; 而Barlow 和 Ellard (2006) 也提到身體缺陷的孩子與正常的孩子相較, 不論是在內在焦慮和壓力, 以及外在攻擊或運動行為都較為明顯, 同時也有較低的自信心。究竟病患的特質對家庭

的影響為何? 是否會造成家庭的另一種壓力, 也是本文想要深入分析與了解的。

在身心障礙者家庭方面, 家有身心障礙者的家庭將面對照顧的問題 (王天苗, 1996; 王慧儀、張志仲, 1996; 徐畢卿, 2002), 此外, 尚需面對經濟壓力 (周月清, 1995; 林琦華等人, 2005; 嚴嘉楓、林金定、顏慶徽、李志偉、吳佳玲, 2004), 以及角色的過度負荷 (黃璉華, 1994; 穆佩芬、馬鳳岐、顧小明、許洪坤、黃碧桃, 2000; Seligman & Darling, 1989), 同時家人互動也可能因改變而帶來挑戰 (利翠珊, 2004; 徐畢卿, 2002; Lavee & Mey-Dan, 1997); 這些影響都可能隨著身心障礙家人的產生, 而帶來對家庭不利的影響。罕病在我國因亦為身心障礙的法定類別之一, 因此除了面對上述的壓力外, 罕病更容易因遺傳特質帶來父母的「愧疚」心理, 這應也是罕病家庭不同於一般身心障礙者家庭所面對的壓力源。

此外身心障礙者在走出家庭後, 將面對的是社會各種壓力, 如就學 (Barlow & Ellard, 2006)、就業 (唐先梅, 2002), 以及就養 (趙明玲、高淑芬、葉健全, 1998) 等。雖然罕病家庭同樣也需承受這些壓力, 但因疾病的特殊性及複雜性, 使他們多了就醫上的需求與困境。同時與社會互動也因社會對疾病了解有限, 更增加諸多的阻力, 而使病患與病患家人的身心易再次受創; 雖然王慧儀、張志仲 (1996) 指出透過社會支持網絡可以減低身心障礙家庭所承受的壓力, 但罕病家庭因其疾病的特殊性, 對社會支持網絡的需求亦有不同的優先順序, 因此本研究在了解這些家庭所面對的壓力為何後, 將有助於規劃所需的協助方案與政策研擬。

研究方法

本研究採立意抽樣的方式, 以能提供深度

與多樣罕病實狀之廣度為標準。選取對象的標準為家中有 18 歲以下、且確定病因為罕病的家庭，對於尚未確診、非罕病、以及病患年齡超過 18 歲者則不在研究之列。目前國內所公告的罕病種類即有近兩百種，但由於本研究的主题著重在家庭壓力，因此不擬依照複雜的醫學分類為標準，而考慮以病患家屬面對壓力的特性來劃分。研究者過去接觸的病患家庭經驗中初步發現，不同病類病患的外觀是否正常，與藥物及特殊奶粉的需要是影響家庭壓力之重要因素，而胡幼慧與姚美華（1996：148）也指出，在抽樣上傾向於從以往經驗或理論視角的理論抽樣（theoretical sampling），是質化研究為求資訊的豐富內涵的重要的抽樣方法之一。因而本研究將採理論抽樣法進行之，以「從外觀可否視出」以及「特殊藥品需求有無」兩項條件加以交叉分為四大類，分別為：外觀有異常且有特殊藥品或奶粉需求、外觀有異常且無特殊藥品或奶粉需求、外觀無異常且有特殊藥品或奶粉需求、外觀無異常且無特殊藥品或奶粉需求。

在研究方法上，本研究將同時採「焦點團體」及「深入訪談」兩種，此兩種質性研究計進行七個月完成。Morgan（1988）曾指出焦點團體法對較新領域的探索，相較於其他質性研究，是一既省錢又省時的方法，且特別是針對認知，感受等課題的研究，此一方法具有其優勢；而胡幼慧（1996：224）也指出，藉由「焦點團體法」對新領域的了解可發展出較具體的研究假設，並可深入較感情，認知，及評價面的意涵；林金定、嚴嘉楓、陳美花（2005：123）也指出，質性訪談是一種為特殊目的而進行的談話--研究者與被訪問者，主要著重於受訪者個人的感受、生活與經驗的陳述，藉著彼此的對話，研究者得以了解及解釋受訪者個人對於社會事實的認知。因此對於了解有限的罕病家庭壓力，透過「焦點團體」及「深入訪談」的

方式，將能從罕病照護者的陳述中呈現家庭壓力的來源。

有關本研究焦點團體的進行，首先透過罕見疾病基金會與研究助理的協助，與居住在不同地區的病友家庭聯絡，先說明本研究的目的、焦點團體資料的處理與進行的方式，而在獲得受訪者的參與同意後，依病類的特質分在不同的團體。焦點團體共分 6 組（G1~G6），每組為 4~6 人，共包括了 13 種不同罕見病類之家庭（參見表一）。

焦點訪問地點以受訪者方便性為考慮，主要在罕見疾病基金會、協會地點、以及病患家中，每組訪談時間約 2~3 小時。同時因考量罕病家庭的時間安排有限，每一組焦點團體皆作一次訪談。研究者在主持焦點團體時以半結構式的訪談大綱作為訪談指引，但訪談進行的順序將依討論的議題、發展、情境決定，而非訪談大綱的順序。進行中主持人將以同理與傾聽的原則，儘量給予受訪者充分表達，但為避免團體中某些成員的特質易成為團體中的主要意見領袖，也適度的導引其他成員表達。同時在討論話題離題太遠的情形下，給予話題的轉換皆是主持者的角色。

雖然焦點團體法對於一個新的研究領域是很好的探索工具，但由於團體的情境可能妨礙了部分議題的討論或是較內向人格受訪者的表達，因此所創造出來的集體想法並不一定與個人「私下」的講法一致（胡幼慧，1996：226），同時由於焦點團體法主要是以「語言」來表達訊息，許多非語言的行為則無法由此方法得知，但「深入訪談」卻可以解決此一問題，除了一方面可驗證「焦點團體」所得的資料，並補充因團體情境所缺少的資訊外，同時亦可從互動中了解罕見病患家人所面臨的壓力、感受、及真正需求。此外深入訪談比焦點團體對於有病患行動不方便又需要家人全職照顧的家庭而言更為適當，因此本研究除了焦點團體

訪問外，亦補充有深入訪談的內容相互呼應，以期呈現較完整的的研究發現。

在本研究中接受深入訪談的對象多為母親，亦有全家參與者（參見表二），訪問的時間約為 2~4 小時，地點多以病患住家為主。訪談過程中研究者為主要訪問者，研究助理則針對不清楚之處提出疑問及釐清，以明確了解受訪者的態度、想法，及表達的意涵。研究者在進行個別訪談前會先與受訪者聯絡建立互動的管道，並了解受訪者家庭的一些背景，以為正式訪問之準備。同時也將說明自身有罕見疾病子女的情形，以化解受訪者非我群的戒心。訪談進行前先以家常話暖身，再進入正式的訪談，並以半結構式的訪談大綱作為指引，但訪談進行的順序將依受訪者的述說發展決定，而非訪談大綱的順序。進行中將盡量給予受訪者充分表達，僅在敘說內容離題太遠的情形下導引回主題。由於深入訪談的受訪者居住在全省各地，考量經費與時間的限制，正式的訪談皆為一次，但為針對所獲得的資訊不清楚、不足夠的樣本，會透過電話訪問的方式獲得所需的資訊。因此每位受訪者包括正式訪問及電話訪問的次數為 2-4 次。

訪談大綱如下：

- 1、從發病到現在印象最深的事是什麼？或說你最感動的是什麼？
- 2、感到最大的壓力是什麼？為什麼？
- 3、孩子（病患本身）對疾病的反應為何？
- 4、孩子在求學時是否會面對不同於一般孩子的問題？
- 5、孩子發病對你家人的影響是什麼？其他家人的反應是什麼？
- 6、家庭的生活是否有改變（對日常生活的影響）？改變最大的為何？
- 7、鄰居或朋友是否會因你們家有這樣的孩子而減少互動，或改變過去交往的方式？

不論是焦點團體或個別式的深入訪談，在訪談結束後，研究者與研究助理將分別記錄受訪者的居家環境，受訪當時之情境等，並針對紀錄表內容在每次完成訪談後加以核對，並討論訪談的經過與情境，針對觀點不同與不清楚之處，再以電話詢問受訪者，所有訪談錄音帶均經逐字謄稿，以為分析之用。

在資料分析上，首先由研究者、研究助理、及罕見疾病基金會一位專職人員仔細閱讀訪談逐字稿，再從所閱讀的資料中找尋出重要的概念加以註記。在完成第一份的逐字稿編碼後，三人將進行第一次的比對工作，針對概念編碼不同處或是遺缺處重新討論與界定。隨著閱讀的訪談逐字稿的增加，除了透過三人對資料編碼一致性的檢視外，主要概念也因重複出現在不同的訪談逐字稿中而更明顯的呈現，如病程發展、疾病確診、家庭經濟影響、照顧者身心消耗、家人關係的影響等等。最後，在檢視主要概念後，透過討論與相關文獻整理，將罕見疾病家庭壓力源主要概念依照不同的歷程進一步整理為六項副範疇，分別為最早的「疾病診斷的複雜度」，確定病情後「疾病照顧的困難」、「病童身心發展的擔心」、「家庭資源的有限」、「社會的排斥」以及因應這些壓力時「家庭互動系統改變」等六個範疇。

研究結果與分析

研究結果發現罕見疾病家庭的壓力源是一個發展的歷程，隨著罕見疾病的確診，以及確定疾病後的家庭照顧，家庭的壓力源是一直在發展與改變的。而當家庭為了因應這些壓力所產生的家庭系統改變，又成為家庭壓力的另一來源。以下將從罕見疾病家庭壓力源的發展歷程來分析本研究的發現。

表一 焦點團體分組受訪者基本資料

組別	分類條件	疾病別	受訪者與患者關係	病患性別	病患年齡	殘障等級	子女數
G1	有藥、外觀異常	A	父親	女	12	重度	2
		B	母親	男	5	重度	1
		B	母親	男	4	中度	2
		C	母親	男	16	重度	3
		D	父親	女	7	極重度	3
		D	母親	女	13	中度	2
G2	無藥、外觀異常	E	母親	男	12	輕度	2
		E	母親	男	9	重度	1
		F	母親	男	6	重度	2
		G	母親	男	13	重度	2
		G	母親	女	11	重度	1
G3	無藥、外觀正常	H	母親	男	1	重度	2
		H	父親	男	1	重度	2
		H	父親	男	1	重度	4
		I	母親	男	10	重度	4
G4	有藥、外觀正常	J	父親	女	8	重度	2
		J	母親	女	9	重度	2
		K	母親	女	14	重度	1
		K	母親	女	17	重度	2
		L	母親	男	14	重度	2
		L	母親	男	3	重度	2
G5	無藥，外觀異常	M	母親	男	10m	極重度	4
		M	母親	女	13	極重度	2
		M	母親	男	1	中度	1
		M	母親	男	11	中度	1
		M	母親	女	2	中度	1
G6	有藥，外觀正常	L	母親	男	11	重度	4
		L	母親	女	15	重度	4
		L	母親	女	9	重度	1
		L	父親	男、女	4	重度	2
		L	母親	男、女	11	重度	2

註：疾病別A(佝僂症)、B(普瑞德威利症候群)、C(高雪氏症)、D(成骨不全症；玻璃娃娃)、E(肝醣儲積症第一型)、F(瓦登柏格氏症)、G(肌肉萎縮症)、H(楓醣漿尿症)、I(脂質貯積性肌病變)、J(苯酮尿症)、K(高血氨症)、L(重症地中海型貧血)、M(表皮分解症；泡泡龍)、N(結節性硬化症)、O(白胺酸代謝異常)、P(進行性肌肉骨化症)。

表二 深入訪談樣本分佈情形

編號	分類條件	疾病別	受訪者與患者關係	病患性別	年齡	殘障等級	子女數
A1	無藥、 外觀異常	G	母親	男	15	重度	3
				男	14	重度	
				男	10	中度	
A2	無藥、 外觀正常	N	母親	男	2	重度	1
A3	無藥、 外觀正常	B	母親	男	8	中度	2
				女	5	無	
A4	有藥及奶粉、 外觀異常	O	母親	女	15	無	3
				男	12	無	
				女	7	極重度	
A5	有藥及奶粉、 外觀正常	E	母親 父親	男	9	無	2
				女	4	重度	
預產 12 月初 (腹中胎兒)							
A6	有藥及奶粉、 外觀正常	H	母親 父親	男	4	無	2
				男	11 個月	重度	
A7	有藥、 外觀異常	M	母親 父親 奶奶	男	6	中度	1
A8	有藥、 外觀正常	L	母親	男	7	重度	2
				男	6	無	
A9	無藥、 外觀異常	P	母親	女	11	無	3
				女	10	無	
				女	9	重度	
A10	有藥、 外觀異常	D	父親 母親	女	9	重度	1

註：疾病別同表一。

(一) 來自疾病診斷的壓力源

1. 疾病的診斷過程是家庭最早的擔憂

林志鴻與曾敏傑(2004)曾指出國內罕病患者從發病到確診,平均約需花 2.5 年的時間,罕病家庭多經歷過漫長的診斷過程,這過程中的不易診斷、不確定性,正是罕病家庭初始的壓力來源。Miles, Funk 和 Kasper (1992)也指出當子女健康產生危機時,父母感受到疾

病的不確定感是影響父母反應的重要因素。兩位家長即指出診斷過程的不易及擔心:

「在兩三歲的時候帶去給小兒科醫生看,醫生都說沒問題...,要找出原因是不容易,我們也是一個醫生換一個醫生,找不出原因就擔心,但是找出原因也有另外的擔心...。」(G1-3)
「其實孩子應該是在出生時就不對了,在他剛出生時,開始時候都不

吃，愛睡，很瘦小，但醫生都說沒有問題…，一直到五歲才真正診斷出他是這種病，也是拖了幾年才知道他真正的病因。」(A3)

2. 疾病的証實是家庭重大轉變的開始

疾病的診斷過程是一種煎熬，但疾病的證實是更多的驚慌與排斥。程子芸(1994)針對先天缺陷兒母親所面對的壓力研究中，也指出“診斷”病因即是對母親的一大影響。Seligman和Darling(1989)也指出先天性身心障礙兒童家庭的父母，在得知孩子生病事實時，有著驚嚇、否認、悲傷、焦慮、憤怒，進而調適、並接受事實的過程。

(1) 拒絕接收診斷結果是病患父母的第一反應

「為什麼是我們！」這是許多罕病病童父母的第一反應，在無法了解病情或控制病情的情況下，排斥與無法接受是病童父母常見最直接的回應。一位育有三位肌肉萎縮症的母親，當她得知三個孩子皆得病後的反應如下：

「開始喔會想是醫生弄錯，不可能…我先生和我都很健康，怎麼會有這種遺傳病…，很難過，就會想說為什麼、為什麼是我們…，就好像是厄命哪、這麼壞，為什麼偏偏給我們遇到…，慢慢的就會想說，阿孩子就要跟我們，那怎麼辦…就是盡力這樣。」(A1)

(2) 父母最終都接受子女得病的事實

除了最初拒絕接受得病的事實外，這些家庭也承受著許多的傷心、擔憂、害怕、無助等反應。由下面焦點團體(G1)的對話，亦可了解這些父母在得知孩子患有罕病當下的感受及面對現實的無奈。

「在知道孩子得到這種病之後，心情很不好受啦。」(G1-4)

「不知所措…。」(G1-2)

「對啊，就是不知道要怎麼辦。那時候我有跟他(孩子)講過，我們兩個上輩子互相欠債，不然我們母子吃藥死一死好了，他說『我不要死』。」(G1-4)

「我們那個孩子都說好，如果真不行…就一起走了…。」(G1-2)

「剛開始知道孩子的狀況都不知道該如何是好，那種難過很難說的，可是日子還是要過啊，那之後有開始去接受，小孩子既然跟了我們了對不對，再怎麼樣我們也要照顧…」(G1-1)

(3) 家庭運作穩定的支撐

當家庭得知家有罕見兒時，除了上述的過程是多數的受訪家庭都經歷外，較為特別的發現是有些父親在這個歷程中所經歷的將不僅是自我需要接受子女疾病的事實，還需要撐起家裡運作的穩定性，並協助妻子接受並面對疾病的挑戰。Hahn, Schone 和 Schone(1996)曾指出一位嚴重及長期疾病的孩子，對家中的主要照顧者—母親，影響最大，且其所承受的壓力是不同於一般孩子的疾病，來自丈夫的支持將有助於減緩其沉重的壓力。而兩位受訪的父親都有說出支持角色的經驗。

「對孩子生病我也很難過，可是家裡也不能一團亂阿…那他(太太)知道孩子生病以後就每天哭…真的是照三餐哭…可是那也不是辦法…我比較冷靜比較理性，想說如果這樣全家都倒下去，那整個家怎麼辦，我就儘量不要讓他在這種氣氛中…不要都很陰霾的氣氛，想說那可不可以幫她這樣」(A6)

「當知道兩個孩子都是得病，我太太都崩潰了，不吃不睡的，整天哭喔…可是還有兩個生病的小孩，那我也只

好小的要顧，老的也要顧，那日子真的很難熬。…」(G1-1)

(4) 對疾病無知的恐懼

罕病與身障兒童家庭不同的，除了病因是遺傳因素外，許多病因是基因的突變、染色體異常、或原因不明等。不僅家屬對疾病多數無知，連醫護人員有時也不一定對該疾病有完整了解，也因此家屬在得知病情後，除了有排斥、難過、害怕外，更有不知所措的感受及對未來的擔心與焦慮，Boss (1988) 在說明家庭壓力事件類型時，就舉出對疾病的不確定與不清楚即是屬於一種模糊不清的壓力事件。

「對，恐懼啊，會想說這是什麼病，阿孩子可不可以平安長大啊，那可不可以結婚啊，都會很擔心。」(G2-4)

「我們家的病，連醫生護士都不清楚，像是可以吃什麼…，那些小診所的醫生護士都不知道，那我們就更害怕…，也不知道可不可以…就是照顧的來、還是…」(G2-1)

「…怎麼會生下…那這個病聽都沒有聽過，就很擔心害怕。」(G2-4)

(二) 疾病照顧困難的壓力源

1. 病症的複雜使罕見家庭面對不同照護的挑戰

對於罕病家庭而言，由於孩子的疾病多為終生疾病，因此不論是哪一種病類，都會感受到長期疾病所造成的壓力，如腦性麻痺病童在發展上的障礙及復健治療會造成父母的壓力 (林琦華等人，2005)，但杜顯型肌肉失常症病童父母所要面臨的則是生活自理的逐漸喪失 (陳季員、鍾育志，2006)。罕病種類相當多，對於外觀異常有傷口或容易受傷的罕見疾病，是否有藥物或食物控制的罕見疾病，都會造成照顧上極大差異。

(1) 外觀異常病患常有傷口與活動照顧的壓力

許多外觀異常的罕見疾病，多半與疾病影響有關，有些可能有水泡或是表皮的病變，如泡泡龍及魚鱗癬症；有些造成是身體發展的問題，如玻璃娃娃容易骨折，藍眼症的聽力與平衡問題，這些孩子往往在照顧上需要特別留意傷口的處理與活動上的安全。一位玻璃娃娃的父親 (G1-5) 也指出他們的壓力是來自「子女活動所帶來的骨折」，因為「我們也沒有辦法限制孩子說一整天都乖乖的坐在那裡，有時候只是輕輕的撞一下，那你就聽到卡一聲…那你就知道完了！又要到醫院」(A7)。而泡泡龍患者的家長也指出他們最大的壓力就是孩子的傷口，「傷口越多越大，壓力就愈大」。他們也提到孩子照顧上的壓力就是水泡傷口：「在學走路的時候，如果不扶怕他，一摔下去喔，那個腳上的水泡全部破掉，可是扶他就怕他的身上我扶到的地方，水泡也會破掉…，每天都是這邊破那邊破。」(G5-5)

(2) 特殊飲食與用藥的壓力

罕見疾病中一些需要特殊飲食與用藥的病類，如有些代謝性的疾病，在照顧上若飲食的不當或藥物沒有按時給與，將可能造成子女生命的威脅，使得家長在這方面感受到困難與壓力，這項壓力也似乎只呈現在需要使用藥物或有特殊飲食的家庭中：

「由於大人要記住定時給他吃玉米粉，那個精神壓力比較重，比較緊張，必須要注意她的飲食時間…什麼時間該吃飯，什麼時候該吃玉米粉，…有時連晚上作夢都會很緊張…會半夜突然醒來，就會想、糟糕！我剛剛有沒有起來泡(玉米粉)給她喝？」(A5)

「孩子用藥身體會有味道，常常有同學取笑他，那他就會偷偷的不吃，我很生氣罵他，他就說都是我把他生成這樣，他不要吃藥…他要像其他的同

學一樣…那怎麼辦…我們只有擔心和難過…」(G4-3)

「對呀！其實我們都會擔心孩子進入青少年的叛逆期，故意不吃藥，那是會要人命的…」(G4-4)

(3) 民間療法是無藥物可控制的罕病家庭常尋求的方法

雖然多數罕病家庭都了解醫療科技在治療罕病的限制，但仍會想盡各種方式，期待奇蹟發生，但隨著症狀日漸惡化而一再失望，尤其是對目前無藥可控制的罕見疾病，總希望「奇蹟」的出現。在尋求民間治療的過程中，家人時間、精力、金錢的花費事小，對病童治癒希望落空卻是另一壓力。一位肝醣儲積症的母親指出：「前一陣子有流行日本那個什麼『日健』電磁波，整組那個買起來一百多萬，好多人買啊，反正大家都是這樣…都希望對孩子有幫助。」(G2-5)；而另一位母親也指出：「我們每個家庭都走了很多冤枉路，花了很多冤枉錢，所以每一家在金錢的壓力上多多少少都有啦…，每次新的方法都沒有效果，才是我們最失望、難過的，可是怎麼辦呢…」(G3-4)。在這樣的期望與失望的循環中，這些家庭不斷的重演相同的戲碼，他們雖然知道每一次的嘗試，成功的機會不大，但就只為了「我們不想放棄任何一次醫治孩子的機會」(G2-3)。

2. 病程發展的惡化是罕病家庭的壓力

由於多數的罕見疾病都沒有藥醫，病情的發展只有趨向惡化，雖然罕見疾病的家庭都了解病程的大致發展，卻仍承受很大的壓力。Eisdorfer (1996) 即指出看到自己最親近的人漸漸的失去知覺與能力，是一種人生極大的壓力。陳季員、鍾育志 (2006) 針對杜顯型肌肉失常症父母面臨壓力的研究中，也發現父母常會因病童病程的惡化而自責，甚至會抱著奇蹟幻想，期望醫學的進步可改變病童面臨死亡的命運。一位育有三位肌肉萎縮症患者的母親，

即沉重的說出孩子病程發展對她的影響：

「他們的情況就是屬於進行性的，情形就愈來愈嚴重，如果開始跌倒了，很容易跌倒，然後跌倒了就爬不起來…看到他們身體愈來愈不好，心情就一直往下掉…，什麼都要幫他們…，晚上睡覺也要起來幫他們翻身，那現在老二連拿杯子的力氣都有了，情況是最差的，不知道能拖多久…(哭泣)」(A1)

(三) 擔心病童個人發展的壓力源

1. 內向、缺乏信心、善體人意的特質讓父母不捨

除了疾病的情形，病人的個人特質也是家庭壓力的主要來源 (Eisdorfer, 1996)。Barlow 和 Ellard (2006) 也提到身體缺陷的孩子與正常的孩子相較下，不論是在內在焦慮和壓力，以及外在攻擊或運動行為都較為明顯，同時也有較低的自信心。許多罕病病童由於外觀的差異、發展的遲緩，或是對自我生活的掌控能力不足，使得在個性上從小即表現出內向、缺乏信心或退縮的情形，讓父母無奈、不捨及愧疚。

「其實說這小孩他很乖又很貼心…，很懂事，那我們就會覺得我們為什麼會把他生成這樣子？…就會很心疼這樣子…他在學校其實很內向，應該是很乖，可是因為個子小又不會爭，有時會被同學欺負。」(A5)
「雖然它是個男孩子，但有時候比女孩子還心思細膩，所以也很容易受傷，像在學校，同學有些什麼動作，他都會有特別的感受…只是可能是生病，對自己很沒有信心，不太說話，…，所以我們就特別心疼他每天要承受這麼多的痛苦。」(A7)

2. 疾病是病童內心的陰影

(1) 病童會隱藏內心的世界

疾病對身體可能的影響，可由醫學得知症狀，但對心理的影響則隱藏在病童內心不易了解。Dolgin, Phipps 和 Harow (1990) 即指出健康狀況、疾病原因、是否能痊癒等，皆會影響病童長期的心理；但不幸的是對於這些與長期疾病對抗的病童而言，內心往往表現出較消極、較負面、較高的壓力 (Gil, Williams, & Thompson, 1991)。一些家長也指出這些病童常會將內心的世界藏起來，表面上是很開心，但內心處卻是很脆弱的：

「…我一直以為我跟他心理建設的很完全了，結果他竟然說這句話，我突然覺得『我應該怎麼辦，我應該怎麼跟他溝通』…，我覺得我們玻璃娃娃的外表看起來都很活潑然後很開朗，但是他心裡面還是會有這一層陰影在。」(G1-2)

「他表面上都好好的，可是我知道他們這種病的孩子心裡都不是很快樂」(G6-1)

「我們這個是女生更敏感…我知道有時她會很難過為什麼得這個病，只是她不說…什麼都放在心上…我也知道她會偷偷在房裡面哭，那我們只有難過…」(G6-2)

(2) 病童對死亡課題有更多的關注

疾病陰影的影響，使罕病病童經常關注死亡的相關課題，對於這些自幼經常進出醫院的病童而言，雖然他們不完全了解死亡，卻非常恐懼死亡，死亡的陰影也是經常存在的。一位泡泡龍病患的母親指出這些孩子對生命的課題是較「早熟的，關切的」(G5-1)，除了自己的女兒會發問這樣的問題外，讓她印象最深切的是在一次她外訪所借住的病友家中，其他病童對生命就有著濃切的興趣，她說：「我就睡在那位病童的房間，那書架上，我就發現放著是『生死學』、『如何面對死亡』、以及一些佛

教的書籍，他媽媽說這些都是他自己(病童)要買來讀的」(G5-1)。另一位養育肌肉萎縮症的母親也提到孩子會經常問：「人死了會到哪裡？我死了也會到那裡嗎？」(A1)。而一位海洋性貧血的母親更指出：「我覺得他們這種小孩很敏感，也比較早熟，像他只有七歲就會問東問西…有關人死了之後怎樣怎樣…他就是要那個死了之後的答案就是了。」(A8)

3. 抗拒得病事實是父母心中的痛

部分罕病的孩子對自己得病感到難過、不平、或怨恨，甚至以拒絕用藥等激烈行為來抗拒，這些態度及行為，也造成父母的不安與壓力。一位母親亦指出：「他會對自己生病感到不平的說：『為什麼哥哥正常，把我生得不正常！』」(G6-5)。抗拒得病事實衍伸出的態度與行為，更是刺激父母心中無法彌補的傷痕。

「其實沒有一個父母親不希望自己的孩子是健康的，…有一次我發現他在被子裡偷偷的在哭，他問我『媽媽，為什麼我就要這樣子？為什麼我就長成這樣子？』心中就好像許多的刀在割一樣，我也沒有答案啊！」(G5-1)

(四) 面對家庭資源困境的壓力源

1. 照顧者身心的耗竭

(1) 生活照顧的依賴程度

Canning、Harris 和 Kelleher (1996) 指出當家中有長期需要照顧的病童時，照顧的困難度將是影響家中照顧者的主要壓力來源，且病童的生病情形愈嚴重，愈不易自我照顧，家中照顧者的壓力愈大。而許淑敏和邱啟濶 (2003) 也發現當疾病的照顧工作難度愈高時，且疾病愈嚴重壓力也越大；程子芸與陳月枝 (1998) 也發現先天缺陷兒童發展遲緩愈嚴重，母親的壓力也越大。幾位受訪母親也都表達了照顧的壓力與對人生的厭倦：

「每個事情我都要幫他們做，上厕所、吃飯、洗澡、喝水，反正都要我，小的還好，兩個大的比較嚴重，所以都不能出去…，家裡又沒有人可以代替，像是永遠沒有喘息的時候…有時候我是感覺說…自己的身體無法再支撐了…」。(A3)

「每次看病如果聽到要住院的時候哦，說實在的，我真不知道怎麼辦。我先生他要去工作，其他孩子還要去讀書，如果又聽到妹妹（病童）要住院的時候，整個人就都累了。…其實長期下來自己都…，可是就是沒有辦法。所以有時候多少會想帶孩子走了算了，這樣也不會大人苦小孩也苦。…」(A4)

(2) 永無終止的照顧

這種心力交瘁又沒有希望的累，是很容易讓照顧者陷入絕境之中，而無法自拔，事實上，幾乎每個罕病家庭的家人，都會經歷身心疲憊殆盡的煎熬，除了自責，看到的是孩子的痛，以及沒有希望的未來。兩位母親即指出：

「現在這個所有吃喝拉的都要我…我真的很累，也把店收起來，但是就是很想休息，那是一種永無終止的感覺…不只是體力上、精神上、還有各方面都是…他爸爸有時候都想讓她隨她的命了，不用治療了…我也想過帶著她一起走，不然怎麼辦」(A9)。

「我們這種（孩子）並沒有藥可以治療…，其實我自己很難過，可是沒地方讓你去紓解，因為沒有人會了解…，我說我壓力好大喔！我常常都快撐不下去了…其實我好希望有人幫我，當有人跟我講我很偉大，其實我心裡是快垮了，但在大家面前又要挺起來…。」(G2-2)

有一位母親就很直接的說：「人家說孩子越大越輕鬆，我們是越大越沉重，一直要到他走的那天…」這也是為何受訪者中有八成的照顧者，尤其母親，都曾有想要帶著孩子一起自殺的念頭或行為，其所反映的是罕病家庭所承受的是一種幾乎令人窒息的沉重壓力。這巨大的壓力也使得許多照顧罕病病患的母親，需藉由藥物來維持情緒上的穩定（唐先梅，2002）。

2. 家庭經濟上的惡化

(1) 醫藥支出增加，收入減少

對許多罕病的家庭而言，經濟的惡化除了因為病童的醫藥花費增加外，另外可能因素是母親必須從職場上退出專心照顧病童，於是在開源無門又不能節流的情形下，家庭經濟的惡化在罕病家庭中是常見的現象。而不幸的是 Canning, Harris 和 Kelleher (1996) 的研究也發現，當家中有長期需要照顧的病童時，家庭的收入愈低，照顧的壓力也愈大。國內的相關研究也證實家有長期疾病子女，經濟問題都是他們必須面對的壓力（趙明玲、高淑芬、葉健全，1998）；而這正也是許多罕病家庭所面臨的問題。

「我已五年不曾買衣服了…，為了孩子，像我就辭去工作後，每個月家庭的收入少了大約五萬多元，而先生每個月收入只有六萬多元…，而且像這樣的孩子又必須經常上醫院檢查，這都是需要額外的支出，其實我們的很多病友在面對經濟上的壓力都是相當大的」。(A2)

「其實孩子生病後真的影響很多；像我本來開家庭美髮的，也有一些收入，現在都沒有了，先生最近收入又減少，不景氣，又要去煩惱孩子這樣；啊沒有工作就沒有飯可以吃，啊其實問題很多啦…有時我都還是要回娘家借錢呢…。」(A4)

在面對家庭經濟的資源困窘時，丈夫似乎承受更強烈的經濟壓力，尤其當社會仍期望男性是家庭經濟主要擔負者時，家中因子女生病所增加的支出，父親似乎對自己的收入有更多的要求，一位泡泡龍病童的父親(A7)就指出：「我的感覺就是找錢的壓力…就是要不斷的賺錢」。

(2) 嘗試民間偏方使家庭經濟不佳

對國內的罕病家庭而言，在醫生宣判無藥可醫的情形下，他們除了期待奇蹟外，剩下的希望就是其他各種可能的方式，其中包括神壇的改運去邪氣，各種新的儀器、養生藥品等等，這些也都使得家庭的經濟更加的窘迫。一脂質貯積性肌病變病童的母親也指出：

「每個家庭為了孩子都走了很多冤枉路，花了很多冤枉錢，所以每一家在金錢的壓力上多多少少都有啦，像是到廟裏改運一次就要好幾千，上次又聽說有一個相命師很厲害可以化解這些災難，他說要做幾次，每次要一萬元…，還有上次有人推銷什麼日本還是德國的藥，說對這個病有幫助，有實驗報告…那就十幾萬…沒有錢就是借錢買，只要可能有幫助就會試試看…」。(G3-4)

(3) 疾病加上貧窮使家庭經濟雪上加霜

部分罕病家庭面對的是世代的遺傳疾病，由於上一、兩個世代都已為此病投入很多的金錢，家庭財務也面臨相當的窘境，在不知為遺傳疾病的狀況下，疾病再次侵襲這個家庭時，經濟上的壓力也就變本加厲。一位地中海型貧血病童的母親指出：

「其實他(病童)爸爸應該也是這個病…，很容易生病，聽我婆婆說常常看病吃藥，還到什麼廟去祭改，家裡為了他還賣了田…錢都用完了也沒有用，最後聽說可用沖喜的方式，我

就這樣嫁過來，可是也沒有用…那時候不知道是這個病，會遺傳…已經沒有錢還又要常常看病…最後親戚朋友都躲我，因為我都是在借錢…」
(G6-1)

3. 家庭資源相關訊息不足

家庭壓力理論強調家庭資源可以減少家庭的壓力，但當家庭資源不足時反而是使壓力增加的另一壓力來源 (McKenry & Price, 1994)。在家庭資源方面除了時間精力與金錢資源的壓力外，相關訊息資源的取得不易是另一罕病家庭面臨的問題，有趣的是提出此方面的壓力多為丈夫，其中包括有疾病資訊、政府補助資訊等的取得，一位肝醣儲積症病童的父親(G3-2)就指出對於疾病的相關資訊獲得很有限，也因此很焦慮：「知道孩子得這種罕見疾病時，我都傻眼了聽都沒有聽過，也不知道嚴重性，上網找也沒有什麼訊息只有很焦慮，很多的資訊都是醫生告訴我們，可是你也知道醫生都很忙，所以很有限…很害怕出了醫院不知道要怎麼辦。」另一位楓糖尿症病童的父親則認為罕見疾病的相關政策及申請手續的不清楚，使家庭在面對家庭照顧病童的壓力外，還需很繁瑣的處理一些法規的事務，他說：「另外的壓力是來自要辦一些手續，你知道嗎要查一些法規是很不容易的，然後又不是很清楚，常常浪費很多時間，來回很多次，Y我們還要照顧孩子…可是我們的病友有些還不知道有這些資源可以用呢」。

(五) 承受社會排斥的壓力源

1. 與人群互動的傷害

罕病家庭在承受的許多壓力中，來自社會的壓力是不可忽視的，尤其是外觀上較為特殊的罕病病童，在父母帶領外出時，常會受到異樣的眼光及令人不舒服的語言刺激，造成這些家庭的另一種傷害。

「有一次我們這樣抱出去哦，就有人口氣不是很好的問我們…，就是很多種這樣說呀說的，所以到後來我就盡量不出去社區中庭。…啊如果出去的時候我就覺得說，為什麼大家那個眼睛都一直向著我看？嘖！這樣子。我會很不爽，我心理就會想說妳們是在看什麼？…所以我會有一個心結的樣子哦…」。(A4)

「其實他看起來都還正常，就是眼睛最明顯…，有時候小孩子會笑他是外星人，或者說他不是我們的孩子，因為爸爸媽媽都沒有藍眼睛，他常常都哭著要回來…」(G2-3)

「有時候我們帶他出門，那有些小孩子不懂，就會說好恐怖，有時候去醫院其他小朋友看到也常常會這樣，我們小孩子看在眼裡，那當然會難過…，我們自己都很難過了，更何況是他們…」。(G5-5)

2. 學校環境的不友善

(1) 同學與老師接受度有限

Barlow 和 Ellard (2006) 也指出長期疾病的孩子與同學的互動，會因疾病發作而需就醫或家照顧，無法正常上課也使得病童與同學的互動產生限制，進而造成孤單的感受。許多病童的父母並不要求孩子在學業上有亮麗成績，反而擔心老師及同學對疾病的不了解，以及無法接受他們的孩子。兩位病童父母即深切表示：

「老師對這種孩子的了解及接受情形，以及與同學之間的相處都是我們所擔心的，像有一位病友，唸小學，但孩子的老師不太能接受，因此常常被老師處罰或在言語上責罵他，…，因此我們那位朋友的孩子對上學是很排斥的」。(A2)

「我家的孩子為了唸書轉了好幾個學校，學校都不敢收我們，要我們轉到有收特殊孩子的學校，就是特教學校…可是那很遠…」(G2-3)

(2) 無障礙空間的缺乏

由於過去許多舊的學校在設計上並沒有考慮無障礙空間的需求，使得一些行動不便的病童，在求學的過程中將更加深一層障礙。一位病童的父親即直接指出：「許多孩子被安排在一樓上課，這就是學校所能提供的設施，一些硬體方面的東西都沒有辦法，差就差在這裡」(G1-1)。而另一位病童的父親更指出：「學校雖然有電梯，但是他做得不是很完善，A棟跟B棟之間他們沒有同時蓋，中間還有兩、三格的樓梯，你坐輪椅根本就沒辦法…」(A10)

3. 未來生活缺少完善的保障

病童父母也很擔心病童不可預知的未來，如病童身體狀況較差，常需請假進出醫院，是雇主考慮聘用時很大的阻力（唐先梅，2002）；趙明玲、高淑芬、葉健全（1998）也指出多數長期重度慢性疾病兒的父母，都會擔心自己年老或是逝世後沒有人可以照顧生病的子女。一位楓糖尿症的父親就擔心孩子未來無法養活自己，他說：「壓力是精神…都有啦！像是因為我們老了走了，他們長大了，不曉得有沒有自己的謀生能力啊，如果身體狀況不是很好的話，有沒有謀生能力啊，對不對，這種壓力是存在的」(A6)。部份家長也都對病童未來的就業與就養提出擔憂：

「那他漸漸長大以後…，他們要去找工作，老闆一聽到他有這些病，好，你明天不要來了，甚至連通知也不通知了！連跟你考核說你過不過也都不講，所以說這個最大的問題在這裡。」(G6-1)

在現代的社會中，重視對未來的保障，然而這樣的觀念及制度，卻只能應用在正常的一

般民眾，也因此一位病童母親感慨的指出：「我和我老公拼命的賺錢，就是為了存錢給他，要不然等到我們老了死了，誰來管他，我們只好不停的工作…」(G2-4)

(六) 家庭系統改變的新壓力源

1. 夫妻關係的疏離

當家中有無法飛離巢穴的幼小病童時，留下的多半是母親承擔著所有的責任與壓力。Lavee 和 Mey-Dan (1997) 針對需要長期照顧的癌症病童家庭研究中發現，父母在承受孩子得病的過程中，不論是在確定診斷的過程、治療的期間、面對孩子生命的威脅，夫妻間的關係往往會有負面的影響。事實上，不論是門診的觀察或是實證的研究，皆發現家有長期疾病的病童對夫妻關係是一大危機(Walker, Manion, & Cloutier, 1992)。

(1) 夫妻溝通減少，婚姻中危機感、不安全感、衝突增加

在焦點訪談中問及孩子生病後對夫妻的影響，許多受訪者皆提到夫妻關係的負面影響，其中包括面對婚姻危機、不安全感、衝突增加、溝通減少等：

「我的婚姻有一些破裂」(G1-5)

「我們已分居」(G1-3)

「有不安全感，怕萬一孩子的爸爸不要我們怎麼辦」(G2-4)

「常常吵架，一直吵啦」(G3-1)

「我們都很煩，講話口氣也比較不好」(G3-4)

「我們現在話愈來愈少了」(G5-1)

(2) 夫妻離異，家庭壓力擴大

Timko, Stovel 和 Moos (1992) 曾指出母親在照顧長期患病的孩子時，來自丈夫的支持將有助於減緩其沉重的壓力，亦即夫妻間的關係良好，將有助於他們在因應孩子生病的調適。而利翠珊 (2005) 也指出身心障礙兒童家庭中

夫妻的壓力並不全然是負面的，親職的支持與親職的分工有助於夫妻的恩情的感受。然而許多的罕病家中，卻是由母親獨立一人來完成照顧的責任。

「與他分開，我覺得難過，也是沒有辦法，反正那已經成為事實了，沒有辦法去改變，…雖然我父母親可以幫忙是很好，但是他們不能跟我們一輩子，所以最好的就是先生的協助。」(A1)

「我們現在已經分開了，小孩的照顧就靠我，壓力當然會增加…就是接受，那孩子是我生的，不然怎麼辦！」(G3-1)

「雖然沒有辦離婚，我們已經分開各過各的，那對於孩子他當然希望有爸爸在，可是每次為了孩子看醫生吵架對孩子也不好，…當然錢方面壓力會增加，還有就是比較沒人可以幫忙。」(A8)

(3) 照顧理念的不同，衝突不斷

由於罕病的病例太少，在照顧上不僅醫生未必有一致的看法，對家人在照顧上也缺乏一定的準則，這也使得在照顧罕病子女時，會因父母的看法不同產生衝突；底下即是兩件夫妻因孩子病情處理的意見不合而吵架的案例。

「我女兒她的病是鈣質過多排不出來，所以什麼樣的東西只要有鈣質的我都排斥它，讓她盡量少接觸，但他(先生)覺得就是這樣孩子越來越瘦，所以應該吃營養的…，不聽他的就會變成吵架…，另外我本來想帶孩子到美國去醫治，可是婆家不贊成因為要花很多錢，那他也是站在他們家那一邊…，所以常常會吵架。」(A9)

「我先生他們家認為他們家族就是這樣，不需要治療…，後來就跟我先

生溝通很久，但是他還是不接受...所以現在送孩子去輸血跟打排鐵劑都是我自已，他（丈夫）都很少幫忙，他認為那是我自己找的，就要自己去處理，為了孩子我也只好這樣了...。」
(A8)

2. 親子關係因子女是否生病而不同

(1) 父母對病童更關心、對其它手足更期待

當罕病家庭中病童不是唯一的孩子時，其手足關係也不同于一般家庭，由於病童承受較大的疾病調適壓力（Cotgreave & French, 1999），且病童內心的問題與適應外在的困難，皆比正常的手足來的多（Baldwin et al., 1993），往往使父母對病童與非病童子女的感覺與期望也不相同（Feeman & Hagen, 1990）。黃璉華（1994）也發現將近六成的唐氏症父母表示會因子女的特殊性而給予較多的關愛。而罕病子女的父母也相似，除對病童有較多的照顧與容忍外，甚且還期待正常子女能多一份照顧生病手足的責任。

「當然會多照顧他...生病的孩子也不是他願意的...」(G2-1)

「我也會要另一個讓他...有時孩子生病情緒會不好，就要哥哥讓他一點」(G2-3)

「對生病的照顧比較多是一定的...一方面會希望在他有限的生命中都快樂，一方面也是對他的補償...」
(G3-3)

「一定會多照顧他們...因為他們自己要承受很多的苦...」(G4-1)

「有時我也會跟妹妹說哥哥的情形，以後長大要照顧哥哥，她可能還小，不是非常了解，常會問『為什麼？』或是說『哥哥比我大應該是他照顧我』。有時我也不知道該怎麼回答他...」。(A3)

(2) 正常孩子容易感受父母對待不公平

過去研究的焦點多以病童狀況為核心，很少重視手足在得知病情後的感受（Faux, 1993），但手足其中一人生病，其所影響的將不只是病患一人，Sahler 等人（1994）即指出，家有生病手足的孩子比家無生病手足的孩子承受較多的壓力。Barlow 和 Ellard（2006）也發現，正常手足因為受到父母較少時間的照顧及關注，使他們與生病的手足間易產生負向的影響。本研究也有相似的發現，一位白胺酸代謝異常的母親即表示：

「他們大家都說我偏心，我說我不是偏心啦，她（病童）不舒服我總是要關心她啊對不對，啊妳們是正常的要怎樣就怎樣；啊她就是不舒服沒有那個能力，妳們反而要更乖更聽話要幫我照顧她才對呀，怎麼可以說我偏心，她們都比較大了；都正常啊...？妹妹這樣子，我們總是要多一份心去照顧她啊。」(A4)

3. 來自家族的壓力

(1) 媳婦背負較多原罪的壓力

上一代父母的態度，也是影響罕病家庭的壓力因素之一。由於孩子是母親生的，因此在觀念較傳統的地方，公婆往往會將此一病因歸諸於媳婦，母親也因而帶著原罪的壓力。幾位母親就指出：

「那時我婆婆她就是說我懷孕的時候，吃太多冰的因素...，其實不是吃冰，那是鮮奶，鮮奶都是冰的...，都把責任怪在我身上...，那個壓力真的是很大，真的是...」。(G3-1)

「他們（婆家的人）都不曾和她（病童）打招呼，...只會對她說啊你爸爸又賺不多，妳又給他這樣，一些不好的話給她聽啦...，那種感覺很不好...。他們不在我面前說，可是都在

背後說都是我不好才生這樣的孩子，其他的媳婦都沒有什麼的…那種感覺很不好…後來就很少回去（婆家）」。(A4)

(2) 要求放棄病童的壓力

此外，對於家族不願接受罕病的孩子，而希望母親能放棄孩子，也是會對家庭造成很大的壓力與掙扎。兩位母親分別指出：

「那時孩子日夜二十四小時在哭，哭兩個小時休息二十分鐘啦，那要怎麼活呀。那已經是很辛苦了，家裡的人（夫家）來罵就回去了，他來唸妳，要妳不要養啦，或是我先生不在的時候打電話來說，不要養啦，妳是要害死你先生是不是…」(G5-1)

「我有一個朋友，也是和我們一樣的，有這種孩子，那時出生的時候，他的婆婆就說這種孩子養不活了，不要養，讓他在醫院自生自滅，他一直哭一直哭…，她（母親）最後才決定帶回家，可是婆家們不高興的…」(G5-3)

結論與討論

本研究結果計有幾項主要的結論：1.罕見疾病家庭的壓力源是一個發展的歷程，而非固定不變；2.單一的理論無法清楚分析罕見疾病家庭的壓力源；3.罕見疾病的差異使家庭所面對的壓力源亦有所不同；4.母親承受較多來自家庭內部照顧與家族的壓力，而父親面對較多尋求家庭外部資源的壓力。茲分別說明與討論如下：

(一) 罕見疾病家庭的壓力源是一個發展的歷程，而非固定不變

本研究發現罕見疾病的家庭壓力源從診

斷過程開始，到確定疾病後的家庭所承受的壓力事件，以及在因應壓力時家庭系統改變所產生的新壓力源，整個壓力源隨著時間與壓力因應的脈絡一直在發展與改變。由於罕見疾病診斷不易，診斷歷程的漫長與不確定是罕見疾病家庭壓力源的開始；雖然 Seligman 和 Darling (1989) 也指出先天性身心障礙兒童家庭的父母，在得知孩子生病事實時，有著驚嚇、否認、悲傷、焦慮、憤怒，進而調適、並接受事實的歷程，但是此一歷程對於罕見疾病家庭而言並沒有結束。從面對疾病開始，疾病照顧的困難、疾病對子女發展的影響、家庭資源的有限、社會的排斥等，皆是家庭中持續不斷的壓力源。而當家庭為了因應這些壓力所產生的家庭系統改變時，如夫妻間關係因照顧子女的需求而減少互動，親子間父母與病童與非病童間關係與期望的改變，以及手足間因手足中有人患病而有改變，更都成為家庭壓力的新來源。而罕見疾病家庭壓力發展的歷程，也呼應了 McCubbin 等人(1981)所提出的 Double ABC-X 模式，強調家庭壓力事件的時間脈絡與累積性的概念。

(二) 單一理論無法完整透視罕見疾病家庭的壓力源

從家庭壓力理論的觀點而言，凡會造成家庭系統中界域、結構、目標、角色、過程、價值等改變的，都稱為壓力事件或壓力源 (McKenry & Price, 1994)。Boss (1988) 也強調壓力源事件的發生最為顯著的影響是引起家庭系統的改變，而“壓力”則是隨著家庭系統的改變而產生的反應。本研究發現罕見疾病對家庭產生壓力並非疾病本身，因為疾病本身是中性的，疾病對家庭造成壓力乃是疾病發生在家庭成員身上，於是疾病診斷的複雜過程是疾病對家庭壓力的開始；確定病因後罕見疾病的特殊照顧；病童身心發展影響；家庭有限的資

源；以及社會的偏誤等這些家庭壓力源將使家庭的系統產生改變，進而使家庭感受到更大的累積壓力。然而罕見疾病家庭的壓力源並非就此停住，當家庭因應壓力所帶來的家庭系統改變時，新的家庭壓力源又產生（McKenry & Price, 1994）。McCubbin 等人（1981）所提出的 Double ABC-X 模式強調家庭壓力事件的累積性，因單一的壓力事件往往不會對家庭產生嚴重的傷害，但是隨者家庭壓力的累積，家庭壓力源除了原先未解的壓力事件，還有家庭可預期的改變，以及家庭因應壓力事件的後果等。

由家庭壓力理論可了解家庭壓力的發展歷程，但無法明確的了解家庭系統在因應壓力時系統內部是如何改變？而這些改變又如何成為新的壓力源？家庭系統理論則提供一個完整清楚架構來了解家庭系統中次系統間的連結與關係。家庭系統理論強調當家庭中重大事件發生時，影響的將不僅止於當事人，其他家庭次系統之間在因應這樣的壓力事件時，次系統界域、關係、與互動也將隨之改變（Day, 1995）。本研究也發現當家中有一長期特殊的罕病病患時，所帶來的影響將改變家庭內部不同的次系統之間的關係與互動，研究結果中也發現因應家有罕見疾病子女壓力而改變的夫妻關係、手足關係、親子關係，以及親屬關係，彼此間是相互影響。Olson（1993）曾指出家庭成員間的關係為因應壓力作適當的調整是有必要的，但過度的緊密糾結或疏離對家庭系統都是不良的。本研究中也發現有些家庭會因罕病子女的照顧問題而造成夫妻關係的疏離、手足關係的僵化緊張、親子關係的過度依附等，這些改變不僅對家庭是負面的影響，更成為新的壓力源。換言之，當家庭次系統間無法配合、妥協、互助、適應，家庭的壓力不但無法減少，反而將因家庭系統的改變而成為新的壓力源，而使家庭壓力更加提高。

家庭壓力理論提供了解家庭壓力的形成與調適過程，而家庭系統理論則提供更清楚的概念，以了解壓力源是如何影響家庭系統及家庭次系統間的互動關係，以及家庭系統改變的負面影響如何成為新的家庭壓力源。顯然單一理論對罕見疾病壓力源的解釋皆是有限的，惟有同時考量兩個理論的觀點，將提供更完整與清楚的輪廓來透視罕病家庭複雜且互動的壓力源。

（三）罕見疾病的差異使家庭所面對的壓力源亦有所不同

Weitzner 和 Knutzen（1998）即指出當家有一位患有長期及嚴重的疾病的患者時，不論原有家庭的功能多健全，都將面臨重大壓力與問題，同時也會因為疾病不同所需的照顧差異產生不同的壓力。本研究也發現罕見疾病的差異會使家庭的壓力源有所不同，以外觀有異狀的罕病兒來說，他們將比外觀沒有異狀的罕病兒承受更多來自社會的排斥，尤其當他們試著與社會有互動時，外觀的特殊性使他們面對較多的拒絕與不友善。由於社會對罕病的不了解與文化中的因果報應價值觀，使罕病兒的家庭面臨的不僅是疾病照顧上的壓力，有更多來自社會所帶來的誤解與排斥。此外一些外觀有異狀的罕病兒，因疾病所造成的外觀病變也使照顧者面臨不同照顧上的壓力，如泡泡龍病患家庭每天必須處理大片皮膚因水泡破裂而剝離的傷口，這些傷口的處理並不是讓父母感到最大的壓力，而是每天必須面對子女皮膚剝離所帶來的疼痛才是最讓父母感到壓力的。

對於需要有特殊的處方或飲食的罕病兒，由於這些藥物與飲食往往與罕病兒的病程發展與生命的延續有著密切的關係，這也使家庭的照顧者有著龐大的壓力來自藥物的管理及飲食的控制，長期的照顧使有些家庭的照顧者甚至也須靠藥物來維繫精神上的穩定，家庭

所面臨的壓力可想而知。但對於不需要用藥或特殊飲食照顧的罕病家庭，雖沒有定期給藥與飲食控制的壓力，期待醫學科技的突破與民間偏方的奇蹟，則是這些家庭尋求的希望；而嘗試各種治療方式的歷程中，不僅家人的時間精力與金錢的耗損，重要的是面對治療失敗後的失望與生病子女日益萎縮的生命。

(四) 母親承受較多家庭內部的壓力，而父親則面對較多家庭外部的壓力

因受傳統性別角色觀的影響，「男主外、女主內」似乎也成為影響罕病家庭中兩性在承受壓力源上有所不同的重要因素。當家中有罕病的病童時，母親多半承受較多來自家庭內的病童照顧壓力與家族不諒解。Hahn, Schone 和 Schone (1996) 曾指出一位嚴重及長期疾病的孩子，對家中的主要照顧者－母親，影響最大。其原因不外乎是女性在我們的社會中仍扮演著主要的照顧角色。而母親受到壓力除了來自長期照顧罕病子女外，也來自母親自身對生育出罕病兒的原罪與愧疚、家族的不諒解、以及需獨立撫養子女等。且其所承受的是超乎男性想像的壓力 (Eisdorfer, 1996; Timko, Stovel, & Moos, 1992)。然而傳統價值的影響將不僅限於母親的家庭照顧角色，對父親的養家角色也深切的影響罕病病童父親的另一層面壓力，當罕見疾病家庭的母親面對巨大的照顧壓力時，父親也將承受著較多家庭資源不足的壓力。而這些壓力似乎都傾向於家庭對外資源的獲得，這包括當家庭在面對醫藥支出增加的需求時，父親有更強烈的「找錢」壓力，以及其他資源如疾病訊息資源的獲得、相關法規的了解與處理等。同時當母親在無法面對子女生病事實時，丈夫更擔負起穩定家庭的支柱，傳統角色的分工似乎在罕病家庭是相當明顯的，也因此罕見疾病家庭成員父親與母親所面對的

主要壓力也將有所不同。

由於一些罕見疾病的發展並不穩定，使得本研究在進行時常有特殊狀況，如焦點團體無藥外觀正常 (G3) 與無藥外觀異常 (G2) 都有受訪家長子女臨時有狀況而無法參與，亦有約好深入訪談的案例，卻在前往途中得知病童臨時過逝或突然生病急需就醫而取消，使得原有規劃的受訪對象有所調整，進而增加本研究樣本掌控的困難度。此外受訪者剛開始對訪問者有一種「你沒有這樣的孩子你不會了解我們所承受的」心態，但當說明研究者同樣有這樣孩子時，很明顯可感受到受訪者願意與你分享整個事件的歷程，但也往往會提出一些政策面或子女的問題反問研究者，使訪問的主題偏離也造成時間的增加。同時在本研究中受訪的對象也多為母親，父親接受訪問較少，但就家庭系統而言，家中有一子女生病，其影響的將是家庭中其他的次系統與整個家庭系統的改變，也因此多增加父親的觀點、家中未生病子女的觀點，或是其他家人的觀點等，都是未來研究中可進一步了解之處。

除了上述研究發現的討論與研究限制外，本研究也提出幾項罕病家庭值得重視的課題，同時也期待政府與民間未來能提供有效的服務方案加以協助，首先對於罕病家庭的協助應從家庭系統的完整概念出發，單一面向的對病童或照顧者的協助，抑或是家庭經濟與人力的支援都是不足的，因家庭在因應家有罕病兒時，改變的將是整個家庭次系統中的界域、關係，與相關聯結。同時在提供相關的資源與方案協助時，應了解罕病的特質及家庭的類型，以及它們所面臨的不同壓力源，如此在社會資源有限的情形下，才能針對不同的病類及家庭的需求，給予更符合需求的實質協助。而如何改變社會對罕病的觀點是未來可以使得力之處，這些家庭在面對疾病所帶來的種種壓力時，更需要社會的支持與關懷，透過媒體正確

報導，社會的價值觀也將因認識而生接納。最後當家有罕見病童時，往往愈發感受到制度面的不完整與社會資源的有限，如社會在就醫、就學、就業、保險、就養制度的規劃上，仍有許多進步的空間；雖然資源有限，但透過不同管道如相關政府單位、民間組織、以及病患團體等，尋求開發並整合對病童及其家庭有助益的各種資源，將使罕病家庭面對困境時，多一份社會支持，也減少一份家庭的危機與壓力。

參考文獻

- 王天苗 (1996)：台灣地區心智發展障礙幼兒早期療育服務供需及其相關問題研究。行政院國科會專題研究計畫成果報告。
- 王慧儀、張志仲 (1996)：探討殘障兒童家屬執行居家治療計畫所面臨之問題。中華物理療誌，21(4)，215-222。
- 行政院衛生署國民健康局婦幼組 (2004)：罕見先天性代謝疾病通報與成果。載於李明亮主編：代謝性疾病：台灣經驗 (402-405 頁)。台中：衛生署國民健康局。
- 李明亮 (2004)：緒論。載於李明亮主編：代謝性疾病：台灣經驗 (1-3 頁)。台中：衛生署國民健康局。
- 利翠珊 (2005)：身心障礙兒童家庭中夫妻的壓力、付出與恩情。中華心理衛生學刊，18(2)，25-54。
- 周月清 (1995)：殘障者及其家庭在家或社區照護需求之研究—「以家庭為中心」或「社區照顧」福利服務模式可行之探討。行政院國科會專題研究計畫成果報告。
- 周麗端、吳明燁、唐先梅、李淑娟 (1999)：婚姻與家人關係。台北：國立空中大學。
- 林志鴻、曾敏傑 (2004)：罕見疾病病患長期照護體系探討。發表於醫療弱勢與社會工作學術研討會。台北：國立台北大學。
- 林金定、嚴嘉楓、陳美花 (2005)：質性研究方法：訪談模式與實施步驟分析。身心障礙研究，3(2)，122-136。
- 林綺華、蔡芸芳、陳月枝、黃美涓 (2005)：腦性麻痺病童父母親之壓力。台灣醫學，9(5)，565-576。
- 胡幼慧 (1996)：質性研究的分析與寫成。載於胡幼慧主編：質性研究—焦點團體法 (159-170 頁)。台北：巨流。
- 胡幼慧、姚美華 (1996)：一些質性方法上的思考。載於胡幼慧主編：質性研究—焦點團體法 (141-158 頁)。台北：巨流。
- 唐先梅 (2002)：由倫理道德觀點探討罕見疾病個案 (含遺傳性疾病) 基因診斷的合宜性。行政院衛生署國民健康局委託報告。台中：衛生署國民健康局。
- 徐畢卿 (2002)：智能障礙兒的婦女家庭照顧者—以自閉兒母親為例。護理研究，49(2)，22-28。
- 許淑敏、邱啟潤 (2003)：家庭照顧者的壓力源與因應行為--以一個支持團體為例。護理雜誌，50(5)，47-55。
- 陳季員、鍾育志 (2006)：杜顯型肌肉失養症病童父母面臨的壓力模式。護理雜誌，53(3)，44-51。
- 程子芸 (1994)：一位生下先天缺陷兒的母親期壓力及克服行為。護理雜誌，4(14)，39-48。
- 程子芸 (1996)：慢性病兒童家庭的適應。護理雜誌，43(4)，49-53。
- 程子芸、陳月枝 (1998)：影響先天缺陷兒童母親在治療過程中壓力源與因應行為的因素。中台醫專學報，10，19-37。
- 黃璉華 (1994)：養育唐氏症兒對家庭的衝擊。護理研究，2(3)，253-262。
- 趙明玲、高淑芬、葉健全 (1998)：探討父母親照顧家中長期重度慢性疾病兒的感

- 受。護理研究，6(3)，219-230。
- 趙美琴 (2004)：遺傳性代謝疾病的一般治療原則。載於李明亮主編：代謝性疾病：台灣經驗 (363-383 頁)。台中：衛生署國民健康局。
- 葉秀珍、曾敏傑、林志鴻 (2002)：各國罕見疾病相關法案之比較研究。台北：國立中正大學與財團法人罕見疾病基金會。
- 穆佩芬、馬鳳岐、顧小明、許洪坤、黃碧桃 (2000)：有罹患癌病兒童之家庭的壓力一對母親之衝擊。護理研究，8(5)，568-578。
- 嚴嘉楓、林金定、顏慶徽、李志偉、吳佳玲 (2004)：智能障礙者人口學特徵與障礙成因初探：以台灣官方身心障礙人口資料檔調查分析。台灣家醫誌，14，173-183。
- Baldwin, K., Brown, R. T., Buchanan, I., Doepke, K., Eckman, J., Goonan, B., & Kaslow, N. J. (1993). Psychosocial and family functioning in children with sickle cell syndrome and their mothers. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 32, 545-553.
- Barlow, J. H., & Ellard, D. R. (2006). The psychosocial well-being of children with chronic disease, their parents and siblings: an overview of the research evidence base. *Child: Care, Health & Development*, 32(1), 19-31.
- Bernstein, C. (1997). *Recurrent loss and grief in families coping with childhood chronic illness: Stephen and his family*. Unpublished doctoral dissertation, Chicago School of Professional Psychology, Chicago: IL.
- Boss, P. (1988). *Family Stress Management*. CA: Sage.
- Brown, R. T., Eckman, J., Sharpe, J. N., & Thompson, N. J. (1994). Predictors of coping with pain in mothers and their children with sickle cell syndrome. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 33, 1246-1255.
- Canning, R. D., Harris, E. S., & Kelleher, K. J. (1996). Factors predicting distress among caregivers to children with chronic medical conditions. *Journal of Pediatric Psychology*, 21, 735-749.
- Clements, D. B., Copeland, L. G., & Loftus, M. (1990). Critical times for families with a chronically ill child. *Pediatric Nursing*, 16, 157-161.
- Cotgreave, M. C. D., & French, D. J. (1999). *The contribution of illness-related and non-illness-related stress to the psychological adjustment of children with asthma*. Paper presented at the 11th Australasian Human Development Conference, Sydney, Australia.
- Day, R. D. (1995). Family-systems theory. In R. D. Day, K. R. Gilbert, B. H. Settles, & W. R. Burr (Eds.), *Research and theory in family science* (pp. 9-112). CA: Brooks/Cole Publishing Company.
- Dolgin, M. J., Phipps, J., & Harow, E. (1990). Parental management of fear in chronically ill and healthy children. *Journal of Pediatric Psychology*, 15, 733-744.
- Eisdorfer, C. (1996). Families in distress: Caring is more than loving. *Psychiatric Annals*, 26, 285-288.
- Faux, S. A. (1993). Siblings of children with chronic physical and cognitive disabilities. *Journal of Pediatric Nursing*, 8, 305-317.
- Feeman, D. J., & Hagen, J. W. (1990). Effects of childhood chronic illness on families. *Social*

- Work in Health Care*, 14, 37-53.
- Gil, K. M., Williams, D. A., & Thompson, R. J. (1991). Sick cell disease in children and adolescents: the relation of child and parent pain coping strategies to adjustment. *Journal of Pediatric Psychology*, 16, 643-663.
- Hahn, B. A., Schone, B. S., & Schone, B. S. (1996). Maternal psychological distress: The role of children's health. *Women & Health*, 24, 59-75.
- Hill, R. (1958). Generic features of families under stress. *Social Casework*, 49, 139-150.
- Lavee, Y., & Mey-Dan, M. (1997). *When the Child Has Cancer : Effect of the Illness on the Parents' Marital Relationship*. Paper presented at the 59th Annual Conference of the National Council on Family Relations, Arlington, VA..
- McCubbin, H. I., Patterson, J., & Wilson, L. (1981). *Family Inventory of Life Events and Changes (FILE): Research instrument*. St. Paul: University of Minnesota.
- McKenry, P. C., & Price, S. J. (1994). Families coping with problems and change: A conceptual overview. In P. C. McKenry & S. J. Price (Eds.), *Families and Change: Coping with Stressful Events* (pp. 1-20). CA: Sage.
- Miles, M.S., Funk, S., & Kasper, M. A. (1992). The stress response of mothers and fathers of preterm infants. *Research in Nursing and Health*, 15, 261-269.
- Morgan, D. L. (1988). *Focus groups as qualitative research*. CA: Sage.
- Nolan, M., Grant, G., & Keady, J. (1996). *Understanding family care*. Great Britain: Open University Press.
- Olson, D. (1993). Circumplex model of marital and family systems: Assessing family functioning. In F. Walsh (Ed.), *Normal family processes* (pp. 104-137). New York: Guilford Press.
- Sahler, O. J. Z., Roghmann, K. J., Carpenter, P. J., Mulhern, R. K., Dolgin, M. J., Sargent, J. R., Barbarin, O. A., Copeland, D. R., & Zelter, L. K. (1994). Sibling adaptation to childhood cancer collaborative study: prevalence of sibling distress and definition of adaptation levels. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 15, 353-366.
- Seligman, M., & Darling, R. B. (1989). *Ordinary families, special children--A systems approach to childhood disability*. New York: the Guilford Press.
- Timko, C., Stovel, K. W., & Moos, R. H. (1992). Functioning among mothers and fathers of children with Juvenile rheumatic disease: A longitudinal study. *Journal of Pediatric Psychology*, 17, 705-724.
- Walker, J. G., Manion, I. G., & Cloutier, P. F. (1992). Measuring marital distress in couples with chronically ill children: the dyadic adjustment scale. *Journal of Pediatric Psychology*, 17, 345-357.
- Weitzner, M. A., & Knutzen, R. (1998). The impact of pituitary disease on the family caregiver and overall family functioning. *Psychotherapy and Psychosomatics*, 67, 181-188.
- Wood, B. L. (1993). Beyond the "psychosomatic family": A biobehavioral family model of pediatric illness. *Family Process*, 32, 261-278.

收稿日期：2008.01.09

接受日期：2008.06.06

The Sources of Distress for Families with Children Affected by Rare Diseases: An Exploratory Qualitative Study

Tang Shain-May

Associate professor, Dept. of Living Sciences,
National Open University

Tseng Min-Chieh

Associate Professor, Dept. of Social Work,
National Taipei University

ABSTRACT

This study, based on qualitative data from in-depth focus group interviews, tried to analyze the sources of stress for families with children suffering from rare diseases from two perspectives; that of family systems theory and that of Double ABC-X model. The study found that the main sources of stress for families with rare diseases include: (1) stress in this complicated period during and immediately following the doctor's diagnosis; (2) stress from difficulties in taking care of the patient; (3) worries about the patient's future development; (4) stress from the family's financial difficulties; (5) stress due to being excluded from the society; (6) new stress coming from changes in the family system. Furthermore, this research also finds that the source of stress for "rare disease families" cannot easily explained by a single theory—it may develop in complex and unpredictable ways. Different rare diseases create different sources of stress, and normally the mother is more stressed than other members of the family during the period of caring for children with rare diseases. By contrast, the father's stress mostly comes from financial pressures and the responsibilities of his job.

Keywords: rare diseases, rare disorders, the disabled, sources of stress, family systems theory, Double ABC-X model