

ABSTRACT

Background: Congenital adrenal hyperplasia (CAH) is a genetic disorder characterized by impaired cortisol biosynthesis, resulting in a range of physiological and psychosocial challenges. The parent-child relationship plays a vital role in a child's development and psychosocial adaptation, especially for those with chronic conditions like CAH, making parental acceptance and rejection an important area of research.

Objective: To identify the factors associated with parental acceptance and rejection toward children with CAH and to explore parents' caregiving experiences with these children.

Methods: This study employed a cross-sectional observational analytic design with cross-sectional observational analytic with a mixed-method embedded correlational approach, incorporating an embedded correlational model within one phase study. Quantitative data were collected from 60 parents of 45 children using a demographic questionnaire, the Parental Acceptance/Rejection Questionnaire (PARQ) Bahasa Indonesia, and the Parental Burnout Assessment (PBA) Bahasa Indonesia. Linear mixed-effect model analyses were conducted to identify which parents' and children's characteristics correlated with the PARQ score and its subscales. Thirteen parents participated in qualitative semi-structured interviews. Thematic analysis was conducted using Braun's and Clarke's criteria. The reliability of qualitative analysis is ensured using trustworthiness criteria by Lincoln and Guba.

Results: Multivariate linear mixed-effect model analysis confirmed that higher parental burnout is significantly associated with greater total PARQ ($\beta = 0.118$, $p = 0.001$) and hostility scores ($\beta = 0.031$, $p = 0.040$). Fathers exhibited significantly higher total PARQ score ($\beta = 2.800$, $p = 0.020$) and higher warmth score ($\beta = 1.418$, $p = 0.003$) than mothers, indicating more rejection and less warmth among the fathers compared to mothers. Lower parental education (specifically parents with junior high school) was significantly associated with greater hostility score ($\beta = 2.355$, $p = 0.026$) compared to parents with university-level education. Qualitative thematic analysis revealed four themes describing parents' caregiving experiences of children with CAH: 1) the process of CAH diagnosis acceptance and how parents expressed their acceptance to their children; 2) caregiving challenges, coping mechanisms, and support for parents; 3) parents' expectation on themselves and their concerns and hope for their children in the future; and 4) how the parents prepare their children

Conclusion: This study represents the first exploratory investigation into factors associated with parental acceptance and rejection in families of children with CAH, particularly within the context of Javanese and Islamic beliefs culture. As a hypothesis-generating study, it offers a foundational framework to guide and inform future research in this domain. Furthermore, the findings contribute to improving genetic counseling practices tailored to the needs of families affected by CAH in Indonesia.

Keywords: congenital adrenal hyperplasia, parental acceptance/rejection, parental burnout assessment, caregiving, parents, children

ABSTRAK

Latar Belakang: Hiperplasia adrenal kongenital (HAK) adalah penyakit genetik yang ditandai dengan gangguan biosintesis kortisol dan menyebabkan beragam komplikasi fisiologis maupun psikososial. Hubungan orangtua dan anak merupakan hal yang sangat penting bagi perkembangan dan kemampuan adaptasi psikosis anak, terutama bagi anak-anak yang menderita penyakit kronik seperti HAK, sehingga diperlukan penelitian tentang penerimaan/penolakan orangtua dalam konteks HAK

Tujuan : Mengidentifikasi faktor-faktor yang berkorelasi dengan penerimaan/penolakan orangtua terhadap anak dengan HAK dan mengeksplorasi pengalaman orangtua dalam mengasuh anak yang menderita HAK.

Metode: Penelitian ini menggunakan desain penelitian *cross-sectional* observasi analitik dengan pendekatan *mixed-method* dengan model *embedded correlational* yang dilakukan dalam satu fase. Data kuantitatif dikumpulkan dari 60 orangtua dan 45 anak menggunakan kuesioner demografik, kuesioner *short-form Parents' Parental Acceptance/Rejection* (PARQ) dan *Parental Burnout Assessment* (PBA) versi Bahasa Indonesia. Analisis *linear mixed-effect models* dilakukan untuk mengidentifikasi faktor apa saja yang berhubungan dengan skor PARQ dan subskalanya. Tiga belas orangtua diikutsertakan dalam wawancara kualitatif semi-struktur. Analisis tematik dilakukan menggunakan kriteria Braun dan Clarke. Reliabilitas analisis kualitatif dipastikan dengan mengikuti kriteria *trustworthiness* yang dikemukakan oleh Lincoln dan Guba.

Hasil: Analisis multivariat *linear mixed-effect models* mengkonfirmasi bahwa tingkat kelelahan (*burnout*) orangtua yang tinggi berhubungan dengan skor PARQ total ($\beta = 0.118$, $p = 0.001$) dan *hostility* ($\beta = 0.031$, $p = 0.040$) yang lebih tinggi. Ayah menunjukkan hasil skor PARQ ($\beta = 2.800$, $p = 0.020$) dan *warmth* ($\beta = 1.418$, $p = 0.003$) yang lebih tinggi dibandingkan ibu, yang menandakan lebih tingginya tingkat penolakan dan coldness pada ayah dibandingkan ibu. Tingkat pendidikan orangtua yang rendah berkaitan (terutama orangtua lulusan sekolah menengah pertama) secara signifikan berkaitan dengan skor hostility yang lebih tinggi ($\beta = 2.355$, $p = 0.026$) dibandingkan orangtua dengan pendidikan tinggi (tingkat universitas). Analisis tematik kualitatif menunjukkan 4 tema utama yang mendeskripsikan pengalaman pengasuhan orangtua terhadap anak yang menderita HAK, diantaranya: 1) proses orangtua menerima diagnosis HAK pada anaknya dan bagaimana orangtua menunjukkan penerimaan kepada anaknya; 2) tantangan pengasuhan, mekanisme *coping*, dan dukungan terhadap orangtua; 3) ekspektasi orangtua pada dirinya sendiri serta kekhawatiran dan ekspektasi orangtua terhadap masa depan anak mereka; dan 4) bagaimana orangtua mempersiapkan anaknya untuk beradaptasi di masa depan.

Kesimpulan: Penelitian ini merupakan penelitian eksploratorik pertama yang mengidentifikasi faktor-faktor yang berhubungan dengan penerimaan/penolakan orangtua terhadap anak yang menderita HAK, terutama di konteks kultural Jawa dan kepercayaan Islam. Oleh karena itu, penelitian ini berkontribusi terhadap ilmu pengetahuan, khususnya dalam pembuatan hipotesis yang dapat mengarahkan penelitian selanjutnya dalam domain penelitian ini. Sebagai tambahan, temuan dari penelitian ini berkontribusi terhadap peningkatan kualitas layanan konseling genetika terhadap keluarga dengan anak yang menderita HAK di Indonesia.

Kata kunci: hiperplasia adrenal kongenital, parental acceptance/rejection, parental burnout, pengasuhan, orangtua, anak