

## 선천성 승모판 폐쇄부전증의 임상적 관찰\*

서울대학교 의과대학 소아과학교실

고재곤 · 최정연 · 윤용수 · 홍창의

= ABSTRACT =

### The Clinical Observation of Congenital Mitral Insufficiency

Jae Kon Ko, M.D., Jung Yun Choi, M.D., Young Soo Yun, M.D.  
and Chang Yee Hong, M.D.

*Department of Pediatrics, Seoul National University Hospital*

We reviewed the clinical and hemodynamic studies in 10 patients with the isolated congenital mitral insufficiency.

The patients ranged in age from 6 months to 16 years at the time of diagnosis and the incidence was 0.26 % among the total congenital heart diseases proven by cardiac catheterization and angiography. In two cases anterior mitral cleft was demonstrated by 2-D echocardiography and /or operation. In one case left coronary artery was originated from pulmonary artery.

Eight cases out of ten presented symptoms indicating varying degrees of left ventricular failure. Apical systolic murmur was heard in all except one, who had only triple rhythm. The electrocardiograms revealed left ventricular hypertrophy in 8 cases and biventricular hypertrophy in 2 cases. Roentgenographically left atrial enlargement was observed in 4 cases. Left atrial and ventricular dimension were increased in 7 cases by echocardiography.

In 5 cases of them, pulmonary artery wedge pressure or left atrial pressure was increased. One patient died in congestive heart failure at the age of 10 months and one patient died postoperatively. Other 4 patients have been managed with medication without difficulty.

**Key Word:** Congenital Mitral Insufficiency.

---

\* 본 연구는 1985년도 서울대학교병원 임상연구비의 일부보조로 이루어진 것임.

## 서 론

선천성으로 나타나는 승모판 폐쇄부전증은 흔하지 않다.

승모판을 구성하는 유두근, 승모판엽, chordae tendinae, commissure 중 어느 한가지에라도 결함이 있거나 서로간에 정상적인 위치관계가 어긋날 때는 승모판 폐쇄부전이 생긴다.<sup>1, 3, 6, 14)</sup>

선천성 승모판 폐쇄부전증은 심내막상결손, 대동맥축착, 심실중격결손, 동맥관개존, 심내막섬유탄성증, 좌관상동맥의 폐동맥에서의 이상기시, 수정대혈관전위, 선천성 대동맥판막 하부협착등에 동반되어 나타나는 경우가 많고 선천성 승모판 폐쇄부전증만 있는 경우는 드물다.

그러나 어린 소아에서 심부전의 증상이나 심질환을 시사하는 증상이 있으면서 승모판 폐쇄부전증의 임상적 소견이 있을 때는 항상 선천성 승모판 폐쇄부전증의 가능성을 생각해 보아야한다.

## 대상 및 방법

1980년 1월부터 1985년 12월까지 서울대학교병원 소아과에서 심도자법 및 수술로 확인된 10례의 선천성 승모판 폐쇄부전증을 대상으로 하였다.

다른 선천성 심기형이 동반된 경우는 제외하고 선천성 승모판 폐쇄부전증이 주된 경우를 포함시켰다.

진단은 9례는 심도자법 및 심혈관 조영술로 확인되었으며 1례는 심에코도만으로 진단을 한후 수술로 그 구조적 이상이 확인되었다.

## 결 과

### 1) 임상증상 및 이학적 소견 (Table 1)

1980년 1월부터 1985년 12월까지 심에코도로 진단된 1례를 제외하고 심도자법으로 확인된 선천성 승모판 폐쇄부전증의 빈도는 그동안의 선천성 심질환 3379례중 9례로 0.26%였다.

진단당시의 환아들의 연령은 6개월부터 16세사이었으며 남아가 6명이었고 여아는 4명 이었다.

류마티열의 병력은 전예에서 없었다. 2명은 증상이 거의 없었고 나머지 8명은 운동시 호흡곤란, 빈번한 상기도감염, 성장지연이 주증상이었으며 이중 7명은 심부전으로 입원한 병력이 있었다. 가장 어린 나이에 심부전이 있었던 경우는 4개월이었으며 모두 5세미만

에 심부전이 발생하였다. 심부전의 기왕력은 확인되지 않았으나 증례 8의 경우도 심도자 검사를 시행할 때는 간비종대, 빈맥 및 빈호흡등 심부전의 증상을 보이고 있었다.

청진소견은 증례 6을 제외한 모든 경우에서 심첨부에서 수축기 전반에 걸친 심잡음이 들려서 승모판 폐쇄부전을 시사하였다. 증례 6은 추적관찰중에도 특별한 심잡음은 들리지 않고 3박자율(triple rhythm)의 심음만 계속되었다. 이완기 심잡음은 2예에서 들렸다.

### 2) 검사소견

증례 7을 제외한 다른 환아에서는 흉부 X선 검사상 중등도이상의 심비대를 나타냈으며 이중 4례에서는 측면사진에서 현저한 좌심방 확장소견이 있었다. 증례 4에서는 폐혈관용영의 증가가 관찰되었다.

심전도상으로는 증례 4을 제외하고는 좌심비대 또는 좌심 과부하 양상이었으며 좌심방 비대의 소견은 5례에서 관찰되었다. 삼첨판 폐쇄부전증이 있었던 증례 3은 양심방비대와 함께 우심실 과부하 양상이 같이 있었다. 좌관상동맥이 폐동맥으로부터 이상기시가 있었던 증례 10에서는 사지유도 I, aV<sub>L</sub>에서 깊은 Q파가 관찰되었다.

심에코도상으로는 9례중 7례에서 좌심방의 용적이 현저하게 늘어나 있었으며 좌심실 용적도 같이 증가해 있었다.

### 3) 심도자법 소견

심도자검사에서 5례에서 폐동맥 쐐기압(wedge pressure), 좌심방압 또는 좌심실 확장기말 압력이 증가해 있었으며 4례에서는 폐동맥압이 상승되어 있었으나 그 정도는 심하지 않았다.

모든 환아에서 좌심실조영술상에서 승모판 폐쇄부전이 확인되었으며 그 정도는 제Ⅲ도 이상이였다.

### 4) 경 과

증례 1과 심에코도상으로 승모판의 열극(cleft)이 관찰되어 심도자법을 시행치 않은 증례 10에서는 수술로써 승모판의 열극(cleft)이 확인되었으나 나머지 수술받지 않은 8례에서는 승모판의 해부학적 병변을 확실히 알 수 없었다.

증례 3은 생후 10개월때 심한 심부전으로 사망하였으며 수술받은 증례 1은 수술이후 심잡음이 없어졌으며 건강하게 지내고 있다. 그러나 심도자법을 시행치 않고 수술한 증례 10은 수술후 3주만에 패혈증및 간기능부전으로 사망하였다. 추적관찰이 안되는 증례를 제외한 나머지 4명은 digoxin 및 이뇨제를 투여하면서 관찰하고 있으며 심기능이 더 나빠지고 있는 증거는 아직 없다.

Table 1.

Case	Age at Dx.	Sex	Age when heart ds. detected	Symptoms when heart Ds. detected	History and age of CHF	Symptoms at Diagnosis	Physical findings
1	16 yr	M	10 Yr	No symptom	—	No symptom	Gr 3/6 systolic m. at Apex
2	9 yr	M	1 Mo	frequent resp. infection	+ (4 6 /12yr )	exertional dyspnea growth retardation	Gr 3/6 systolic m. at Apex
3	6 Mo	M	4 Mo	tachypnea irritability	+ (4 Mo )	retraction tachypnea	Precordial bulging Gr 4/6 systolic m.
4	2 yr	M	8 Mo	frequent resp. infection hoarseness	+ (1 5 /12yr )	exertional dyspnea excessive sweating growth retardation tachypnea	Precordial bulging Gr 4/6 systolic m. at Apex and LLSB Liver ; 2 FBP
5	12 Mo	M	6 Mo	tachypnea	+ (6 Mo )	tachydyspnea	Gr 3/6 systolic Gr 2/6 diastolic m. at Apex Liver, 1½ FBP
6	8 Mo	F	3 Yr	facial edema abdominal distention palpitation	+ (3 yr)	exertional dyspnea cold sweating growth retardation	triple rhythm no definite m. Liver 3 FBP
7	2 3/12	F	10 Mo	No symptom	—	No symptom	Gr 2/6 systolic m. at Apex Congenital left eye ptosis
8	7 yr	M	3 Yr	frequent resp. infection	—	exertional dyspnea growth retardation fatigue cold sweating	precordial bulging Gr 4/6 systolic m. at Apex Liver 3 FBP Spleen 2 FBP
9	1 4/12	F	1 Mo	tachydyspnea	+ (5 mo )	exertional dyspnea growth retardation	Gr 2/6 systolic m. at Apex
10	5 yr	F	6 Mo	dyspnea	+ (4 4 /12yr )	exertional dyspnea facial edema	Gr 3/6 systolic m. at LLSB and Apex early diastolic m. Liver 3 FBP

PW : pulmonary artery wedge pressure

LCA : left coronary artery

Chest X - ray	EKG	Echo.	Angiography & catheterization findings	Follow - up
moderate cardiomegaly	LVH	LVID ↑ LAD ↑	PW mean ( $\bar{8}$ ) LV 124 / - 4 / 4 PA 24 / 3 ( $\bar{10}$ ) MR IV	Surgery was done. Anterior leaflet Cleft
moderate cardiomegaly LAE ( + )	LAE LVH	LVID ↑ LAD ↑ E - F slope ↑	PA 40 / 12 ( $\bar{20}$ ) LA 92 / - 12 / 4 MR IV	Follow - up with digoxin and diuretics
moderate cardiomegaly	tall R deep S in V6	LVID ↑ E - F slope ↑	PA 38 / 20 ( $\bar{28}$ ) LA a = 16 ( $\bar{12}$ ) v = 16 LV 92 / 8 / 14 MR IV, TR IV	died of CHF at 10 Mo of age
moderate cardiomegaly slightly vascularity ↑ LAE ( + )	LAE LVH deep S in V6	LVID ↑ LAD ↑ E - F slope ↑	PW mean ( $\bar{37}$ ) PA 72 / 40 ( $\bar{52}$ ) LV 108 / - 10 / 8 MR III	Follow - up with digoxin and diuretics
moderate cardiomegaly pulmonary congestion	LVH	LVID ↑ LAD ↑ E - F slope ↑	PW Mean ( $\bar{22}$ ) PA 52 / 24 ( $\bar{36}$ ) LV 88 / 0 / 28 MR IV	Follow - up with digoxin
moderate cardiomegaly LAE ( + ) pulmonary congestion WNL	LAE incomplete RBBB  RAD 1° A - V block	LAD ↑ E - F slope ↑  LVID →	PW mean ( $\bar{25}$ ) PA 49 / 30 ( $\bar{34}$ ) LV 112 / - 8 / 12 MR IV  PA 20 / 4 ( $\bar{12}$ ) LV 100 / 0 / 20 MR III	Follow - up with digoxin and diuretics no definite m.  —
moderate cardiomegaly LAE ( + )	LAE LVH	No record	PA 54 / 24 ( $\bar{34}$ ) LV 80 / 0 / 8 MR IV	—
marked cardiomegaly	LVD LVH deep Q in I. aV <sub>L</sub>	LVID ↑ LAD ↑	PA 30 / 13 ( $\bar{18}$ ) LV 100 / - 4 / 4 MR III Aberrent origin of LCA from pulmonary artery	—
marked cardiomegaly pulmonary congestion	BAE BVH	LVID ↑ LAD ↑ anterior mitral cleft	Not performed	Anterior leaflet cleft was confirmed by surgery. died of sepsis and hepatic failure at 3 wks after operation

Table 2. A Classification of Congenital Mitral Insufficiency

1. Associated with other congenital heart anomalies
  - a) Endocardial cushion defects
  - b) Corrected transposition of the great vessels
  - c) Chronic ischemia and fibrosis due to aberrant coronary arteries
  - d) Miscellaneous (endocardial fibroelastosis, patent ductus arteriosus, aneurysmal dilation of left atrium or left ventricle, ventricular septal defects, coarctation of the aorta)
2. Isolated
  - a) Isolated cleft leaflets
  - b) Perforated leaflets
  - c) Abnormal or accessory chordae tendineae - anomalous chordal insertion
  - d) Isolated dilated annulus
  - e) Double orifice of the mitral valve
  - f) Ebstein anomaly of the mitral valve
  - g) Anomalies of the papillary muscles

## 고 안

선천성 승모판 폐쇄부전증은 상당히 드문 선천성 심질환의 하나이다.

그 정확한 발생빈도는 알 수 없으나 저자들의 경우는 심도자법으로 진단된 선천성 심질환중 0.26%를 차지하였다.

정상적인 승모판 폐쇄를 위해서는 판막을 구성하는 요소인 판막엽, Commissure, annulus, chordae tendineae, 유두근들이 구조적으로 또 기능적으로 정상이어야 하며 좌심방과 좌심실의 구조 및 기능 또한 정상이어야 한다.<sup>1)2)3)6)</sup> 이러한 조건이 어긋나면 승모판 폐쇄부전 또는 협착, 혹은 폐쇄부전과 협착이 동시에 생긴다.<sup>14)</sup>

선천성 승모판 폐쇄부전증에 대해서 많지는 않으나 임상소견 및 병변에 대한 고찰 및 경과에 대한 보고들이 더러나와 있다.<sup>3)-9,11,12,14)</sup> 이들을 살펴보면 선천성 승모판 폐쇄부전증을 일으키는 원인들을 여러가지로 설명하고 있으며 대개는 비슷하였다. Sanchez등<sup>12)</sup>은 그 원인들을 Table 2와 같이 종합 정리하였다.

저자들의 경우는 승모판 전엽의 열극(cleft)이 2례에서 수술로 확인되었을 뿐이고 다른 예는 그 해부학적 이상은 확인할 수 없었다.

Layman등<sup>6)</sup>은 anomalous mitral arcade가 선천성 승모판 폐쇄부전증을 일으킬 수 있다고 보고하면서 그 원인을 발생학적 관점에서 설명하면서 삼첨판도 태생기 발생과정이 유사하기 때문에 같은 병변이 삼첨판에도 생길

가능성이 있다고 주장하였다. 삼첨판 폐쇄부전이 같이 있었던 증례 3의 경우에 가능성을 생각해 볼 수 있겠다.

선천성 승모판 폐쇄부전증이 있을 때의 임상증상과 이학적 소견은 류마티성 심질환때의 승모판 폐쇄부전증과 대개는 동일하나 선천성일 경우에는 일찍부터 빈번한 상기도감염, 성장지연등이 나타난다.<sup>1,2,7,-9)</sup>

Carney등<sup>7)</sup>의 9례에서는 1/3에서는 영아기부터 증상이 있고 1/3에서는 10세까지 증상이 나타났으며 나머지 1/3은 10세이후에야 첫 증상이 나타났으며 이중 피로감이 제일 많았고 운동시 호흡곤란이 다음이었다.

저자들의 경우도 증상이 거의 없는 경우가 각각 16세, 2년 3개월인 2례가 있었으나 나머지 8명은 대부분 생후 이른 시기부터 빈번한 상기도감염, 운동시 호흡곤란등이 관찰되었으며 5명에서는 성장지연이 현저하였다.

선천성 승모판 폐쇄부전증때는 심부전이 잘 나타난다.<sup>1)</sup> Talner등<sup>7)</sup>의 경우는 선천성 승모판 폐쇄부전증이 있었던 10례중 9례에서 생후 일찍부터 심부전의 증상을 보였다. 저자들의 경우도 증상이 없었던 2례를 제외하고는 심부전의 기왕력이나 진단 당시에 심부전의 소견이 있었다.

생후 어린 나이에 폐쇄부전이 심하면 그 증상이 빨리 나타나게 되며 심부전이 심한 경우에는 위험할 수도 있다.<sup>2)</sup> 저자들의 경우에도 증례 3은 4개월때 심부전이 나타났으며 생후 10개월때 심한 심부전으로 사망하였다.

임상적으로 어린 나이에 심부전의 증상과 함께 승모판 폐쇄부전의 소견이 의심될 때는 일단 선천성 승모판 폐쇄부전을 생각하여야 한다.<sup>11)</sup>

이학적소견으로는 좌심실확장에 의한 심첨부 박동이 증가하며 승모판 폐쇄부전으로 수축기 전반에 걸친 심잡음이 심첨부에서 들리며 제3심음이 잘 들리는 경우도 많고 역류되었던 혈류에 의해서 심첨부에서 이완기잡음이 들리는 수도 있다. 또한 상당수에서는 폐동맥압의 증가로 인하여 제2심음이 크게 항진되어 있다.<sup>11-3,7-9)</sup>

저자들의 경우에는 분명한 심잡음은 없이 3박자율(triple rhythm)의 심음만 들리는 경우가 한예 있었다.

흉부 X선검사상으로는 좌심방 및 좌심실확장의 소견이 주로 보인다. 폐혈관 음영이 증가되어 보이는 경우도 있으며 폐울혈의 소견이 동반되는 수도 있다.<sup>1,2,3,7,8,9)</sup> 심전도상으로도 대다수에서는 좌심방과 좌심실비대의 소견을 보이며 승모판 폐쇄부전만 있는 경우는 QRS 축은 대개 정상이다.<sup>1,2,3,7,9)</sup> 저자들의 경우도 좌심실비대의 소견들이 관찰되었으며 5례에서는 좌심방확장이 분명하였다.

심에코도의 소견은 좌심방 및 좌심실 확장의 소견을 보이며 심부전이 없는 경우에는 심기능을 나타내는 지수들은 대개 정상이다. M-mode 심에코도상으로도 승모판엽이 두터워졌거나 판엽의 조기폐쇄등이 관찰되는등 승모판이 비정상임을 알 수 있는 경우가 있으며 E-F slope가 증가되어 있다.<sup>1,16)</sup> 2-D 심에코도에서는 승모판의 구조적 이상이 관찰되는 경우가 있으며 특히 열극(cleft)이 있는 경우는 관찰이 용이하다.

저자들의 경험으로는 심내막상결손시 승모판의 열극이 확인되는 경우가 많이 있었으나 선천성 승모판 폐쇄부전증만 있을때는 한 예에서만 열극이 확인되어 심도자를 시행치않고 수술을 받았다.

심도자법으로는 좌심실 확장기말 압력의 상승과 좌심방압력, 특히 V파의 상승을 관찰할 수 있다. 폐쇄부전의 정도가 상당한 경우는 대부분 폐동맥쇄기압(wedge pressure)이 증가한다. 특히 좌심방과 폐동맥쇄기압은 크고 뽀족한 V파와 급히 하강하는 Y부분이 특징적이다.<sup>1,2)</sup>

심혈관 조영술상에서는 확장된 좌심방과 폐쇄부전이 잘보인다. 좌심방의 확장된 정도가 류마티성 판막질환때 보다 훨씬 현저한 것이 특징적이다.<sup>1)</sup>

선천성 승모판 폐쇄부전증만 있는 경우는 좌관상동맥의 이상기사가 그 원인일 수도 있으므로 대동맥조영술을 고려해야 한다는 주장도 있다.<sup>1)</sup> 증례 10의 경우에는 심전도상에서 사지유도 I, aVL에서 깊은 Q파와 좌측 흉부유도상에서 QS양상이 보여 좌관상동맥의 이상

기사가 의심되었었다.

저자들의 경우에 대부분 과거력상에서 어린 나이에 심부전이나 심잡음이 확인되었기 때문에 선천성으로 기인한 승모판 폐쇄부전의 가능성을 생각할 수 있었으나 증례 1과 같이 별 증상이 없고 나이가 들어서 심질환을 처음 알게된 경우는 류마티성 판막질환과 감별이 곤란하여 수술 및 병리학적 소견만이 감별할 수 있는 유일한 경우도 있다.<sup>1,2)</sup>

선천성 승모판 폐쇄부전증의 수술적 치료는 그 원인이 되는 구조적 이상이 다양하기 때문에 수술방법 역시 서로 달라질 수 있다. Flege, Talner, Sanchez등<sup>3,9,12)</sup>은 Valvuloplasty나 annuloplasty등으로 좋은 결과를 보고하였으며 Fujii등<sup>13)</sup>은 적절한 수술방식만 적용한다면 소아기에서의 판막치환술은 아직 많은 문제점이 있기 때문에 되도록이면 교정술이 더 나으리라고 생각하고 있다.

그러나 Bregbuis등<sup>4)</sup>은 승모판의 구조적 이상의 종류에 따라서는 교정술이 불가능하고 판막치환술이 필요할 때도 있다고 생각하고 있으며 Galisto등<sup>15)</sup>은 조절이 힘든 심한 심부전과 함께 성장지연이 있는 경우에는 심기능 저하가 점차 진행되는 증거가 있다면 어린 나이에도 판막치환술을 시행해야 한다고 주장하였다.

선천성 승모판 폐쇄부전증의 예후는 그 폐쇄부전의 정도, 구조적 이상의 정도 및 종류, 증상의 발현시기, 또 합병된 다른 심기형동에 좌우되지만 아직까지는 약물요법에 의한 치료가 우선이며 조절이 힘든 심부전이나 심한 성장지연이 있을때는 수술요법이 필요하며 그때도 판막치환술보다는 판막교정술에 의한 수술요법이 추천되고 있다.<sup>1,2,3,13,14,16)</sup>

## 결 론

다른 주된 심기형이 동반되지 않은 선천성승모판 폐쇄부전증 10례를 관찰하였다. 빈도는 심도자법으로 진단된 선천성 심질환중에서는 0.26%였다.

임상증상 및 이학적소견은 류마티성 판막질환과 비슷하였으나 어린 나이에 호흡곤란 및 잦은 상기도감염이 있고 성장지연이 나타났다.

수축기 전반에 걸친 심잡음이 심첨부에서 들렸으며 심전도 및 흉부 X선검사상에서는 좌심방과 좌심실 확장의 소견이 절반이상이었으며 심에코도상으로도 9례중 7례에서 좌심방 및 좌심실용적의 증가가 관찰되었다. 심혈관 조영술에서는 전부 III도이상의 승모판 폐쇄부전이 관찰되었다.

2례에서 수술로써 승모판 전엽의 열극이 확인되

었다.

한예는 심부전으로, 한예는 수술후 사망하였으며 추적관찰이 가능한 4례는 약물요법만으로 잘 지내고 있으며 심기능이 더 나빠지고 있는 증거는 아직 없다.

## REFERENCES

- 1) Keith JD et al : *Heart disease in infancy and children*. 3rd Ed MacMillan Co NY p828-846 1978
- 2) Nadas AS and Fyler DC : *Pediatric cardiology*. 3rd Ed., Philadelphia, WB Saunder Co, p516-521, 1972
- 3) Flege JB, Vlad P and Ehrenhaft JL : *Congenital mitral incompetence*. *J Throacic Cardiovasc Surg* 53:138-144, 1967
- 4) Bregbuis J et al : *The surgical anatomy of isolated congenital mitral insufficiency*. *J Thoracic Cardiovasc Surg* 47:791-798, 1964
- 5) Davachi F, Möller JH and Edwards JE : *Diseases of the mitral valve in infancy. An anatomic analysis of 55 cases*. *Circulation* 43:565, 1971
- 6) Layman JE and Edwards JE : *Anomalous mitral arcade. A type of Congenital mitral insufficiency*. *Circulation* 35:389, 1967
- 7) Carney EK et al : *Congenital mitral regurgitation on clinical, hemodynamic and angiocardigraphic findings in nine patients*. *Am J Med* 33:223, 1962
- 8) Levy MJ et al : *Mitral insufficiency in infants, children and adolescent. A review of etiologic, electrocardiographic, radiologic and pathologic factors and surgical techniques*. *J Thoracic Cardiovasc Surg* 45:434, 1963
- 9) Talner NS et al : *Congenital mitral insufficiency*. *Circulation* 23:339, 1961
- 10) Hagler DL et al : *Real time wide-angle sector echocardiography: atrioventricular canal defects*. *Circulation* 59:140, 1979
- 11) McEnany MT, English TA, Ross DN : *The congenitally cleft posterior mitral valve leaflet, an antecedent to mitral regurgitation*. *Ann Thoracic Surg* 16:281, 1973
- 12) Sanchez PA et al : *Surgical correction of congenital mitral insufficiency*. *Dis Chest* 55:395-399, 1969
- 13) Fujii N et al : *Surgical correction of isolated congenital mitral valve regurgitation. A report of seven cases*. *Nippon Kyobu Geka Gak kai Zasshi* 31:55, 1983
- 14) Carpentier A et al : *Congenital malformation of the mitral valve in children. pathology and surgical treatment*. *J Thoracic Cardiovasc Surg* 72:854-866, 1979
- 15) Galiooto FM et al : *Mitral valve replacement in infants and children*. *Pediatrics* 67:230, 1981
- 16) Adams FH, Emmanouilides GC : *Heart disease in infants, children and adolescents*. 3rd Ed, Williams and Wilkins, 1983