

Συγγενές γιγαντιαίο υδροκύστωμα κάτω βλεφάρου σε ασθενή με πιθανό στοματο-προσωπο-δακτυλικό σύνδρομο: αναφορά περίπτωσης και ανασκόπηση της βιβλιογραφίας

Δημήτριος ΔΕΛΙΓΙΑΝΝΙΔΗΣ¹, Δημήτρης ΤΑΤΣΗΣ¹, Δέσποινα ΜΙΧΑΗΛΙΔΟΥ¹, Νικολέτα ΠΑΣΤΕΛΛΗ², Κωνσταντίνος ΑΝΤΩΝΙΑΔΗΣ³

Κλινική Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής, ΓΝΘ «Γ. Παπανικολάου»
(Διευθυντής: Καθηγητής Κ. Αντωνιάδης)

Congenital giant lower eyelid hidrocystoma in a patient with possible orofacial digital syndrome: case report and literature review

Dimitrios DELIGIANNIDIS, Dimitris TATSIS, Despoina MICHAELIDOU, Nikoleta PASTELLI,
Konstantinos ANTONIADES

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, General Hospital G. Papanikolaou
(Head: Prof K. Antoniades)

Ενδιαφέρουσα περίπτωση
με Βιβλιογραφική Ανασκόπηση
Case Report with Literature Review

ΠΕΡΙΛΗΨΗ: Τα υδροκυστώματα είναι καλοήθεις κυστικές βλάβες που ορμώνται από τους εκφορητικούς πόρους των ιδρωτοποιών αδένων. Διακρίνονται δύο κατηγορίες - εκκρινή και αποκρινή - και συχνά απαντώνται στην περιοχή της κεφαλής και του τραχήλου. Στην παρούσα εργασία περιγράφεται περίπτωση ευμεγέθους συγγενούς υδροκυστώματος στο κάτω βλέφαρο σε ασθενή με πιθανό στοματο-δακτυλο-προσωπικό σύνδρομο. Ιδιαίτερο χαρακτηριστικό της περίπτωσής μας αποτελεί η οστική κοίλανση και η δημιουργία ευρέος εντυπώματος στη μετωπιαία απόφυση της άνω γνάθου. Επίσης, γίνεται ανασκόπηση των βασικών κλινικών και ιστολογικών χαρακτηριστικών των υδροκυστωμάτων.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: Υδροκύστωμα, βλέφαρο, συνδακτυλία.

SUMMARY: Hidrocystomas are benign cystic lesions which arise from the secretory part of sweat glands. Hidrocystomas can be either eccrine or apocrine and are often found in the head and neck region. In this paper we present a case of a large congenital hidrocystoma of the lower eyelid in a patient with possible orofacial digital syndrome (ODS). A special feature in our case was the presentation of bone remodeling of the anterior surface of the maxilla. The basic clinical and histological features of hidrocystomas are also reviewed.

KEY WORDS: Hidrocystoma, eyelid, syndactyly.

¹ Ειδικευόμενος/-η Ιατρός

ΣΓΠΧ

² Παθολογοανατόμος,
Επιμελήτρια Α', Εργαστήριο
Παθολογικής Ανατομικής,
ΓΝΘ «Γ. Παπανικολάου»

³ ΣΓΠΧ, Καθηγητής,
Διευθυντής Κλινικής ΣΓΠΧ,
ΓΝΘ «Γ. Παπανικολάου»

Παρελήφθη: 23/10/2020 - Έγινε δεκτή: 1/2/2021

Paper received: 23/10/2020 - Accepted: 1/2/2021

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Το υδροκύστωμα στην τελευταία ταξινόμηση του Παγκόσμιου Οργανισμού Υγείας κατατάσσεται ως καλοήθης εξαρτηματικός κυστικός όγκος του δέρματος που εξορμάται από τους ιδρωτοποιούς αδένες (Sangueza και συν. 2018). Ιστολογικά αναγνωρίζονται δύο τύποι, τα εκκρινούς και αποκρινούς αρχής, κατ' αντιστοιχία με τον τύπο του ιδρωτοποιού αδένα από τον οποίο αναπτύσσονται (Font 1996, de Viragh και συν. 1997). Η εντόπιση του στην περιοχή των βλεφάρων δεν είναι σπάνια. Η συχνότητα του υδροκυστώματος υπολογίζεται στο 5,9% του συνόλου των όγκων των βλεφάρων, ανευρίσκεται σε άνω και κάτω βλέφαρο με αναλογία 1:1, δεν δείχνει προτίμηση μεταξύ των δύο φύλων και η μέση ηλικία εμφάνισης είναι τα 58 έτη (Deprez και Uffer, 2009). Παρουσία πολλαπλών υδροκυστώματων έχει περιγραφεί σε ασθενείς με σύνδρομο Golz και Schopf-Schulz-Passarge (Temple και συν. 1990, Hampton και συν. 2005).

Σκοπός της εργασίας είναι η παρουσίαση περιστατικού υδροκυστώματος βλεφάρου σε ασθενή με πιθανό στοματο-δακτυλο-προσωπικό σύνδρομο. Ιδιαίτερο χαρακτηριστικό της παρούσας περίπτωσης αποτελεί η παρουσία οστικής κοίλανσης στην πρόσθια επιφάνεια της άνω γνάθου εντός της οποίας εδραζόταν η βλάβη.

ΑΝΑΦΟΡΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Άνδρας 36 ετών προσήλθε στο Τμήμα Εξωτερικών Ιατρείων της Κλινικής μας κατά τους θερινούς μήνες λόγω παρουσίας συγγενούς μορφώματος του αριστερού κάτω βλεφάρου, με βραδεία αύξηση του μεγέθους του και απουσία λειτουργικών διαταραχών. Παράλληλα, προκαλούσε παραμόρφωση στο έσω τριτημόριο του κείλους του κάτω βλεφάρου (Εικ. 1). Το συνολικό αισθητικό αποτέλεσμα ήταν μη αποδεκτό από τον ασθενή. Στο ατομικό αναμνηστικό του ασθενούς αναφέρονται κειρουργηθείσα συνδακτυλία χειρών αμφίπλευρα κατά την παιδική ηλικία (Εικ. 2) και ατελής κειλεοσχισία (Εικ. 3), η οποία επιβεβαιώθηκε κατά την κλινική εξέταση. Κατά την παιδική ηλικία έγινε διερεύνηση για ταυτοποίηση του συνδρόμου που δεν απέδωσε.

Σε απεικονιστικό έλεγχο (MRI οφθαλμικών κόγχων – δακρυοκυστεογραφία), προ επαετίας, που προσκόμισε ο ασθενής περιγράφεται παρουσία δύο αλλοιώσεων διαστάσεων 18x6 χιλ. η πρώτη και 16x10 χιλ. η δεύτερη. Οι αλλοιώσεις εντοπίζονται στην περιοχή του δακρυϊκού πόρου, με την δεύτερη να ευρίσκεται επί τα εκτός της πρώτης, και χωρίς ευρίματα από τη δακρυοκυστεογραφία που να συνηγορούν υπέρ της ύπαρξης επικοινωνίας των αλλοιώσεων με τον πόρο. Σε μαγνητική τομογραφία ένα μήνα πριν την πρώτη του εξέταση στο τμήμα μας απεικονίζονται δύο κυστικές αλλοιώσεις διαστάσεων 9,3x6,4x20 χιλ. η πρώτη και 17x22x19 χιλ. η δεύτερη, η οποία παρουσίαζε εικόνα πίεσης στην κατωφέρεια του σύστοιχου οφθαλμικού βολβού (Εικόνα 4). Στην αξονική τομογραφία σπιλαχνικού κρανίου

INTRODUCTION

Hidrocystoma is being classified as a benign adnexal cystic tumor of the skin, according to the latest classification of the World Health Organization, which originates from the sweat glands (Sangueza et al. 2018). Two types of the tumor are being recognized histologically, namely of eccrine and apocrine origin, in correspondence with the type of the sweat gland, from which they develop (Font 1996, de Viragh et al. 1997). The recognition of the tumor in the eyelid area is not rare. Hidrocystoma is estimated to occur in 5.9% of the total of eyelid tumors, located on the upper and lower eyelid in a 1:1 ratio, with no sex preference and mean patient age of 58 years (Deprez and Uffer 2009). Presence multiple hidrocystomas have been reported in patients with Golz and Schopf-Schulz-Passage syndromes (Temple et al. 1990, Hampton et al. 2005).

The purpose of this article is to present a case of eyelid hidrocystoma in a patient with possible orofacial digital syndrome (ODS). A special feature of the following case was the presentation of bone remodelling of the anterior surface of the maxilla, where the lesion was located.

CASE REPORT

A 36 year old man came to our outpatient clinic during the summer due to the presence of congenital formation of the lower left eyelid, with a slow increase in size and no functional disorders. At the same time, he presented



Εικ. 1αβ: Κλινική εικόνα του ασθενούς προεγχειρητικά.
Fig. 1ab: Preoperative clinical presentation of the patient.



Εικ. 2: Χειρουργηθείσα συνδακτυλία άνω άκρων.
Fig. 2: Surgically treated syndactyly of the upper extremities.



Εικ. 3: Εικόνα ατελούς χειλεοσχισίας,
Fig. 3: Image of incomplete cleft lip.

που ζητήθηκε δεν παρατηρήθηκε μεταβολή των απεικονιστικών ευρημάτων (Εικ. 5).

Στον ασθενή προτάθηκε η χειρουργική αφαίρεση των αλλοιώσεων αυτών. Κατά την περίοδο αναμονής της επέμβασης παρατηρήθηκε κλινική βελτίωση. Για την επαναξιολόγηση του ασθενούς ζητήθηκε νέα CT στην οποία παρατηρήθηκε μείωση των διαστάσεων της βλάβης. Τελικά, μέσω υποβλεφαριδικής τομής έγινε αναγνώριση και αφαίρεση των δύο κυστικών αλλοιώσεων οι οποίες εδράζονταν εντός οστικής κοίλανσης στην περιοχή του ρινοδακρυϊκού πόρου (Εικ. 6). Ο ασθενής παρουσίασε ομαλή μετεγχειρητική πορεία. Η παθολογοανατομική εξέταση του παρασκευάσματος κατέδειξε ευρήματα συμβατά με υδροκύστωμα (Εικ. 7).

Ο ασθενής ένα χρόνο μετά την επέμβαση παραμένει ασυμπτωματικός και χωρίς εικόνα υποτροπής της βλάβης (Εικ. 8).

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Οι ιδρωτοποιοί αδένες διακρίνονται σε εκκρινείς και αποκρινείς, με τους εκκρινείς να εντοπίζονται σε όλο το σώμα ενώ οι αποκρινείς ανευρίσκονται κυρίως στις μασχάλες, τη θηλή του μαστού, το περίνεο, τα βλέφαρα και το τριχωτό της κεφαλής (Warwick και Williams, 1973). Οι εκκρινείς ιδρωτοποιοί αδένες είναι μικρότεροι σε μέγεθος και διαθέτουν εκφορητικό πόρο σε αντίθεση με τους αποκρινείς που εκβάλλουν στην επιφάνεια του δέρματος μέσω του τριχοσμηγματικού θυλάκου. Το έκκριμα των αποκρινών αδένων είναι λιγότερο όξινο και με ιδιαίτερη οσμή. Στην περιοχή της κεφαλής και του τραχήλου τα βλέφαρα αποτελούν συχνή θέση εντόπισης υδροκυστών, όπου προκαλούν λειτουργικά προβλήματα και ανεπιθύμητα κοσμητικά αποτελέσματα. Τα εκκρινή υδροκυστώματα προκύπτουν από απόφραξη του εκφορητικού πόρου του ιδρωτοποιού αδένα που ακολουθείται από διάταση αυτού (Alfadley και συν. 2001), ενώ τα αποκρινούς αρχής θεωρούνται αποτέλεσμα αδενωματώδους κυστικού πολλαπλασιασμού των αποκρινών αδένων (Alagheband και Maida, 2004).

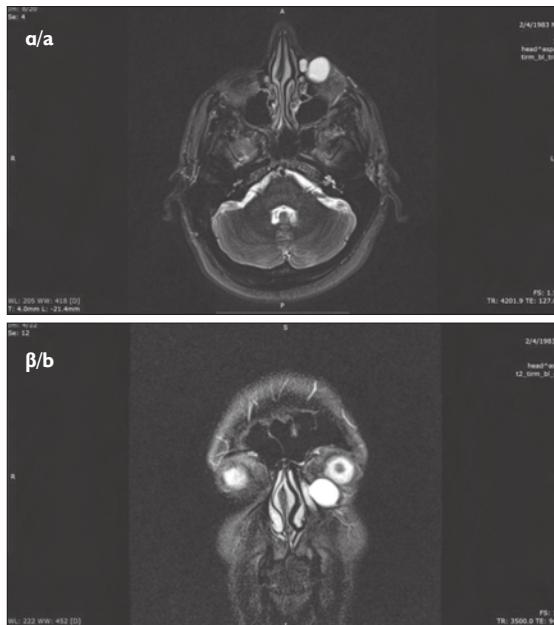
with a deformation in the inner third of the eyelid's margin. (Fig. 1). The total esthetic result was unacceptable from the patient's side. Patient's medical history includes syndactyly hand surgery during childhood and incomplete cleft lip (Fig. 3), which was confirmed during clinical examination. A clinical investigation was carried out for exploration of a possible diagnosis of the syndrome during childhood, that did not lead anywhere.

During an imaging assessment (orbital socket MRI-dacryocystography), which was carried out 7 years ago (brought to us by the patient), two lesions were described, the first one measured 18x6mm and the second 16x10mm. The lesions were located in the lacrimal duct region, with the second lesion located laterally to the first. There were not any findings from the dacryocystography denoting presence of any communication of the lesions with the lacrimal duct. In an MRI carried out one month before his first clinical examination in our department, two lesions are detected, which were measured at 9.3x6.4x20 mm and 17x22x19 mm respectively. The second lesion demonstrated pressure signs in the lower part of the ipsilateral eye bulb in the MRI (Fig. 4). In the viscerocranum CT that was asked from the patient we did not observe any change of the imaging findings (Fig. 5).

The surgical removal of these lesions was suggested to the patient. During the waiting period prior to surgery clinical improvement was observed. For the re-evaluation of the patient we asked for a new CT scan in which we observed decrease in the dimensions of the lesion. Eventually, we identified and removed the two cystic lesions by a sub-eyelid incision, which were both located inside a bony depression of the lacrimal duct region (Fig. 6). The patient's postoperative course was uncomplicated. The histopathological findings were consistent with hidrocystoma (Fig. 7). The patient remains asymptomatic and with no signs of regression of the lesion (Fig. 8).

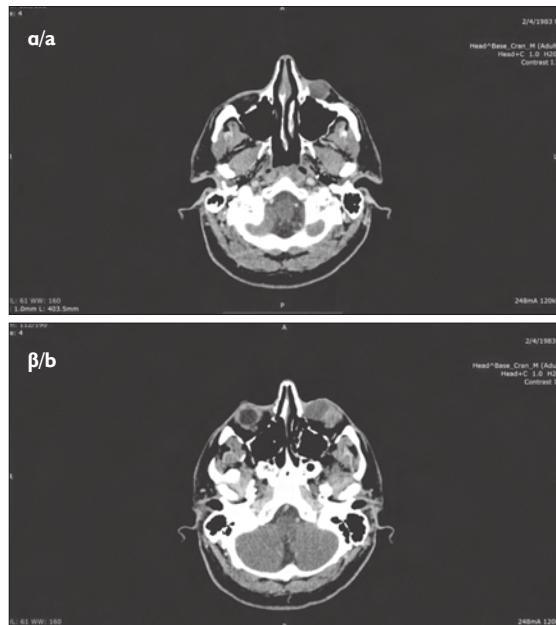
DISCUSSION

The sweat glands are divided into eccrine and apocrine,



Εικ. 4αβ: MRI σπλαχνικού κρανίου. Στις T2 ακολουθίες παρουσιάζεται το μόρφωμα υψηλού σήματος στην υποκόγχια περιοχή αριστερά σε αξονική και οβελιαία τομή.

Fig. 4ab: MRI of visceral skull. In T2 sequences a high signaling formation is presented in the inferior orbital region on the left in axial and sagittal slice.



Εικ. 5αβ: CT σπλαχνικού κρανίου. Κυστική βλάβη σε στενή σχέση με το υποδόριο, όπως διαφαίνεται στις τομές. Χαρακτηριστικά φαίνεται η οστική κοιλανση.

Fig. 5ab: CT of visceral skull. Cystic lesion in close relation to the subcutaneous layer, as appears in the slices. The characteristic bone cupping is obvious.

Τα εκκρινή και αποκρινή υδροκυστώματα έχουν παρόμοια κλινική εικόνα και παρουσιάζονται ως νηματοειδικά ή θολωτά κυστικά μορφώματα με χρώμα που ποικίλλει και συχνά μπορεί να είναι κυανό. Αν και έχει περιγραφεί υδροκύστωμα με διάμετρο 7cm (Holder και συν. 1971) η διάμετρος των αλλοιώσεων αυτών συνήθως κυμαίνεται από 1mm έως 15mm, με τα αποκρινή κατά κανόνα να είναι μεγαλύτερου μεγέθους. Τα εκκρινή υδροκυστώματα μπορεί να είναι μονήρη (τύπος Smith) ή πολλαπλά (τύπος Robinson), ενώ τα αποκρινή είναι συνήθως μονήρη. Αξιοσημείωτο χαρακτηριστικό, ιδίως των εκκρινών υδροκυστώματων, αποτελεί η αύξηση των διαστάσεων τους κατά τους θερινούς μήνες και η ελάττωση κατά τους κειμερινούς (Alfadley και συν. 2001). Ο ασθενής μας εμφάνιζε διπλή βλάβη, με μέγεθος σαφώς μεγαλύτερο του συνηθισμένου, κυανού χρώματος που προκαλούσε παραμόρφωση του κάτω βλεφάρου. Ανάλογου μεγέθους υδροκυστώματα, αν και σπάνια, περιγράφονται τόσο στο άνω βλέφαρο (Malhi και συν. 2015, Al Rasheed και Al Samnan 2019) όσο και στο κάτω βλέφαρο (Singh και συν. 2017). Επίσης, ο ασθενής παρουσίασε μεταβολή των διαστάσεων της βλάβης ακολουθώντας το πρότυπο που αναφέρθηκε.

Στη διαφορική διάγνωση περιλαμβάνονται αγγειακές ανωμαλίες, καλοήθεις και κακοήθεις όγκοι των βλεφάρων. Ιδιαίτερη έμφαση πρέπει να δοθεί στον αποκλεισμό του κακοήθους μελανώματος και του βασικοκυτταρικού καρκινώματος (Sarabi και Khachemoune, 2006). Λόγω της παρουσίας πιθανού στοματο-προσωπο-δακτυλικού

with the former being located all over the body and the latter mainly in the arm pits, the breast nipples, perineum, eyelids and the hair-bearing scalp (Warwick and Williams, 1973). The eccrine sweat glands are smaller in size and have an excretory duct, while the apocrine excrete on the surface of the skin through the smegmatic hair follicle. The excretion of the apocrine glands is less acidic and with a special smell. In the head and neck region hidrocystomas are usually detected in the eyelids, where they cause functional problems and undesired cosmetic results. Eccrine hidrocystomas originate from obstruction of the excretory duct of the sweat gland, followed by its distension (Al-fadley et al. 2001), while those of apocrine origin are considered the result of adenomatoid cystic proliferation of the apocrine glands (Alagheband and Maida, 2004). Eccrine and apocrine hidrocystomas have a similar clinical presentation as hemispheric cystic formations with various colors, cyan being the most common. Even though a 7cm diameter hidrocystoma has been reported (Holder et al. 1971), the usual diameter of these lesions usually ranges between 1 mm to 15mm, with apocrine hidrocystomas being usually larger. Eccrine hidrocystomas might be singular (Smith's type) or multiple (Robinson's type), while the apocrine ones are usually single. A distinct characteristic, especially of eccrine hidrocystomas, is their size increase during the summer months and their decrease in the winter months (Alfadley et al. 2001). Our patient presented with a double lesion, with a clearly larger than usual size, of cyan color causing a deformation of the



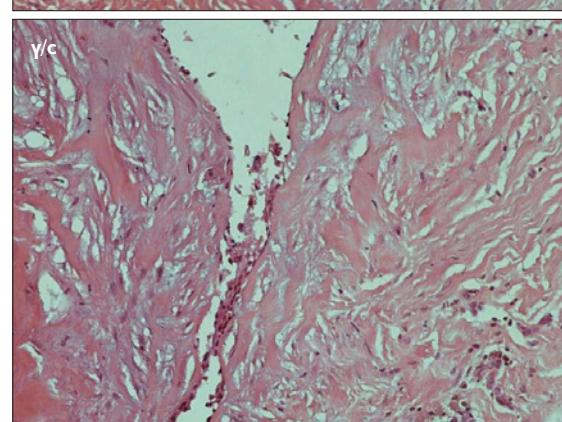
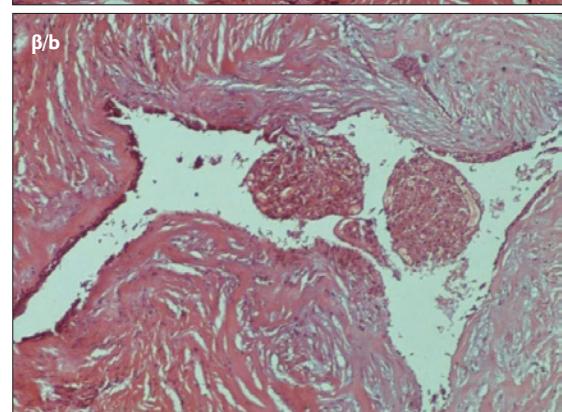
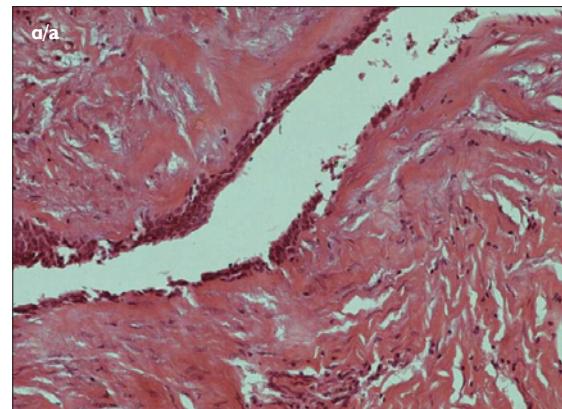
Εικ. 6: Διεγχειρητική εικόνα. Εμφανής η οστική κοίλανση στην πρόσθια επιφάνεια της άνω γνάθου.

Fig. 6: Intraoperative image. The bone cupping in the front surface of the upper jaw is obvious.

συνδρόμου στον ασθενή μας στη διαφορική διάγνωση συμπεριλήφθηκε ως πιθανότητα η παραμονή κατάλοιπου σχιστίας. Με βάση τα κλινικά χαρακτηριστικά του ασθενούς δεν είναι δυνατή η ένταξη του σε συγκεκριμένο τύπο στοματο-προσωπο-δακτυλικού συνδρόμου, παρά μόνο στους λεγόμενους μεταβατικούς τύπους (Gurnieri και συν. 2007).

Εύρομα που χρήζει ιδιαίτερης αναφοράς και καθιστά ξεχωριστή την περίπτωσή μας αποτελεί η δημιουργία ευμεγέθους εντυπώματος (κοίλανσης) της πρόσθιας επιφάνειας της άνω γνάθου, που παρατηρήθηκε στον απεικονιστικό έλεγχο και επιβεβαιώθηκε διεγχειρητικά, με αποτέλεσμα το σχηματισμό κοιλότητας εντός της οποίας εδραζόταν η αλλοίωση. Ελάχιστες περιπτώσεις υδροκυστώματος περιγράφονται στην αγγλική βιβλιογραφία όπου παρατηρείται επηρεασμός των οστικών δομών που γεινιάζουν με την αλλοίωση (Malihu και συν. 2015, Al Rasheed και Al Samman 2019).

Ιστολογικά, τα εκκρινή υδροκυστώματα εμφανίζονται ως μονόχωρες κύστεις που εσωτερικά επενδύονται από 1-2 στοιβάδες χαμηλών κυβοειδών κυττάρων, ενώ αποσιάζουν θηλώδεις προσεκβολές. Τα αποκρινή υδροκυστώματα εμφανίζονται ως μονόχωρες ή πολύχωρες αλλοιώσεις με εσωτερική επένδυση από κυβοειδές ή κυλινδρικό επιθήλιο, με παρουσία θηλώδων προσεκβολών και επιπολής κυτταροπλασματική απέκκριση (Jakobiec και Zakka, 2011). Τα μορφολογικά αυτά χαρακτηριστικά βοηθούν μεν στη διάκριση μεταξύ εκκρινούς και αποκρινούς υδροκυστώματος, αλλά όχι με απόλυτη ακρίβεια. Η χρήση ανοσοϊστοχημικών μεθόδων και ειδικότερα της χρώσης HMFG (human milk fat globulin 1), χαρακτηρίζεται ως καθοριστικής σημασίας για την ασφαλή διάγνωση (de Viragh και συν 1997). Στην περίπτωση μας, η παρουσία μονόχωρης κύστης σε συνδυασμό με την επιθηλιακή επένδυση της και την απουσία θηλώδων προσεκβολών παραπέμπουν σε εκκρινές υδροκυστώμα. Η αντιμετώπιση των υδροκυστωμάτων που εντοπίζονται



Εικ. 7αβγ: Μονόχωρη κύστη με ινώδες τοίχωμα που επενδύεται από στιβάδα μικρών κυβοειδών κυττάρων χωρίς θηλώδεις προσεκβολές στον αυλό. Η εικόνα είναι συμβατή με υδροκύστωμα.

Fig. 7abc: Unilocular cyst with fibrous wall lined by a layer of small cuboidal cells without papillary projections into the lumen. The image is compatible with hidrocystoma.

lower eyelid. Hidrocystomas of similar size, even if they are rare, have been described in both the upper (Malihu et al. 2015, Al Rasheed and Al Samman 2019) and the lower eyelid (Singh et al. 2017). Furthermore, the patient presented with a dimensional change of the lesion following the pattern mentioned earlier.

Differential diagnosis includes vascular abnormalities, benign and malignant tumors of the eyelids. Special emphasis is placed on the exclusion of malignant melanoma and



Εικ. 8αβ: Μετεγχειρητικό αποτέλεσμα.

Fig. 8ab: Postoperative result.

στα βλέφαρα, ανεξαρτήτως του τύπου τους, περιλαμβάνει την χειρουργική εξαίρεση της βλάβης –η οποία αποτέλεσε την επιλογή μας–, την έγχυση τριχλωροξικού οξέος εντός της βλάβης, την τοπική χορήγηση ατροπίνης ή σκοπολαμίνης, το laser διοξειδίου του άνθρακα καθώς και την ηλεκτροχειρουργική (Sarabi και Khachemoune, 2006).

Συμπερασματικά, τα υδροκυστώματα είναι κυστικές αλλοιώσεις που διακρίνονται σε εκκρινή και αποκρινή. Απαντώνται συχνά στην περιοχή της κεφαλής και του τραχήλου δείχνοντας προτίμηση στα βλέφαρα. Παρά την καλοήθη βιολογική συμπεριφορά τους είναι δυνατό να προκαλέσουν οστική απορρόφηση και ιδιαίτερη προσοχή απαιτείται για τον αποκλεισμό κακοήθων όγκων που κλινικά μπορεί να ομοιάζουν με υδροκυστώματα.

basal cell carcinoma (Sarabi and Khachemoune, 2006). Due to the presence of a possible orofacial digital syndrome we included in our patient's differential diagnosis a possible cleft lip remnant. According to the clinical characteristics of the patient it was impossible to classify him to a certain type of orofacial digital syndrome, only in the so called transitional types (Gurrieri et al. 2007).

A very special finding which makes our case distinct is the creation of a large bone impression (bone remodeling) in the anterior surface of the upper jaw, which was observed in the imaging control and confirmed during the surgery, resulting in the formation of a lesion-bearing cavity. Few cases of hidrocystoma have been described in the English literature where the adjacent bone structures to the lesion are affected (Malihi et al. 2015, Al Rasheed and Al Samnan 2019).

Histologically, eccrine hidrocystomas appear as unilocular cysts internally invested by 1-2 layers of low cuboidal cells, while papillary projections are absent. Apocrine hidrocystomas appear as unilocular or multilocular lesions internally invested by cuboidal or cylindrical epithelium, with papillary projections and superficial cystoplasmic excretion (Jakobiec and Zakra, 2011). These morphological characteristics are helpful in the distinction between eccrine and apocrine hidrocystoma, but not with absolute accuracy. The use of immunohistochemistry methods and especially HMFG tint (human milk fat globulin I), is characterized as of outmost importance for a safe diagnosis (de Viragh et al. 1997). In our case, the presence of a unilocular cyst in conjunction with its epithelial investment and the absence of papillary projections denote eccrine hidrocystoma.

The treatment of hidrocystomas located in the eyelids, regardless of their type, includes surgical removal of the lesion-which consisted of our treatment of choice in the present case-, infusion of trichloroacetic acid inside the lesion, local administration of atropine or scopolamine, CO₂ laser as well as electrosurgery (Sarabi and Khachemoune, 2006).

In conclusion, hidrocystomas are cystic lesions divided in eccrine and apocrine. They are often located in the head and neck region with a preference in the eyelids. Despite their benign biological behavior it is possible to cause bone resorption and special attention must be given for the exclusion of malignant tumors that clinically resemble hidrocystomas.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

- Al Rasheed R, Al Samnan M. Congenital giant orbital eccrine hidrocystoma. Am J Ophthalmol Case Rep. 2019 Dec; 16: 100570
- Alagheband M., Maida M.F. Asymptomatic periorbital, bluish cystic papule. Crtl Forum. 2004 Jan;17(1):36-41
- Alfadley A, Al Aboud K, Tulba A, Mazen M. Multiple eccrine hidrocystomas of the face. Int J Dermatol. 2001;40:125–129
- De Viragh PA, Szeimies RM, Eckert F. Apocrine cystadenoma, apocrine hidrocystoma, and eccrine hidrocystoma: three distinct tumors defined by expression of keratins and human milk fat globulin I. J CutanPathol 1997; 24: 249-255
- Deprez M, Uffer S. Clinicopathological features of eyelid skin tumors. A retrospective study of 5504 cases and review of literature. Am J Dermatopathol 2009;31(3):256 –262.
- Font RL. Ophthalmic Pathology. An Atlas and Textbook. 3rd ed. Philadelphia: WB Saunders; 1996. Eyelids and lacrimal drainage system; pp. 2229–32.
- Gurnieri F, Franco B, Toriello H, Neri G. Oral-facial-digital syndromes: review and diagnostic guidelines. Am J Med Genet A 2007 Dec 15;143A(24):3314-23
- Hampton PJ, Angus B, Carmichael AJ. A case of Schopf-Schulz-Passarge syndrome. ClinExpDermatol 2005;30(5): 528–530.
- Holder WR, Smith JD, Mocega EE. Giant apocrine hidrocystoma. Arch Dermatol. 1971;104(5):522-3
- JakobiecF, Zakka F. A reappraisal of eyelid eccrine and apocrine hidrocystomas: microanatomic and immunohistochemical studies of 40 lesions. Am J Ophthalmol.2011 Feb;151 (2):358-74.e2.
- Mehrdad Malih, Roger E. Turbin, Neena Mirani& Paul D. Langer. Giant Orbital Hydrocystoma in Children: Case Series and Review of the Literature, Orbit2015, 34:5,292-296
- Sangueza OP, Cassarino DS, Glusac Ej, Kazakov DV, Requena L, Swanson PE, Vassalo C. WHO Classification of Skin Tumours. 4th ed. Chapter 3, p.183. IARC, Lyon, 2018
- Sarabi K, Khachemoune A.Hidrocystomas—a brief review. Med Gen Med 8(3):57, 2006
- Singh M, Kaur M, Gautam N. Giant eccrine hidrocystoma of the eyelid. Indian J Dermatol Venereol Leprol 2017;83:267
- Temple IK, MacDowall P, Baraitser M, Atherton DJ. Focal dermal hypoplasia (Goltz syndrome). J Med Genet 1990; 27(3):180–187.
- Warwick R, Williams PL. Gray's Anatomy, 35th ed. Longman Group Ltd: Edinburgh, 1973, pp 1168–1169.

Διεύθυνση επικοινωνίας:

Δεληγιαννίδης Δημήτριος, Δόκιμο Μέλος ΕΕΣΓΠΧ
Γ.Ν.Θ. Γ. Παπανικολάου
Εξοχή, ΤΚ 57010, Θεσσαλονίκη
Τηλ: +30 6934 361002
e-mail: deligiandim@gmail.com

Address:

Dimitrios Deligiannidis
“G. Papanikolaou” General Hospital of Thessaloniki
Exochi, 57010 Thessaloniki, Greece
Tel.: +30 6934 361002
e-mail: deligiandim@gmail.com

