

# Πλειόμορφο αδένωμα δακρυϊκού αδένου: Χειρουργική αντιμετώπιση μέσω πλάγιας οστεοτομίας του κόγχου

Δημήτριος ΔΕΛΗΓΙΑΝΝΙΔΗΣ<sup>1</sup>, Βασίλειος ΜΠΑΝΙΚΑΣ<sup>2</sup>, Δημήτριος ΤΑΤΣΗΣ<sup>1</sup>, Χρήστος ΜΑΓΟΠΟΥΛΟΣ<sup>3</sup>

Κλινική Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής, 424 ΓΣΝΕ  
(Διευθυντής: Δρ. Χ. Μαγόπουλος)

## Pleomorphic adenoma of lacrimal gland: Surgical management via lateral orbitotomy

Dimitrios DELIGIANNIDIS, Vasileios BANIKAS, Dimitrios TATSIS, Christos MAGOPOULOS

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, 424 General Military Hospital of Thessaloniki, Greece  
(Head: Dr. C. Magopoulos)

Ενδιαφέρουσα περίπτωση  
Case report

**ΠΕΡΙΛΗΨΗ:** Το πλειόμορφο αδένωμα του δακρυϊκού αδένου είναι σπάνιος καλοήθης όγκος επιθηλιακής προέλευσης. Η παρουσία του προκαλεί άλλοτε άλλου βαθμού λειτουργικές και αισθητικές διαταραχές, ενώ παράλληλα ελλοχεύει ο κίνδυνος κακοήθους εξαλλαγής. Η προεγχειρητική βιοψία όγκων με κλινικά και απεικονιστικά χαρακτηριστικά πλειόμορφου αδενώματος αποτελεί αμφιλεγόμενο θέμα. Η χειρουργική αντιμετώπιση του όγκου αυτού αποτελεί τη θεραπεία εκλογής. Ποικίλες προσπελάσεις έχουν περιγραφεί στη βιβλιογραφία για την εξαίρεση ενδοκογχικών όγκων, με την επιλογή της καταλληλότερης να στηρίζεται κατά κύριο λόγο στην θέση και το μέγεθος του όγκου. Στο άρθρο παρουσιάζεται περίπτωση πλειόμορφου αδενώματος του δακρυϊκού αδένου και η χειρουργική τεχνική που χρησιμοποιήθηκε για την αφαίρεση του.

**ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ:** Πλειόμορφο αδένωμα, δακρυϊκός αδένος, οστεοτομία κόγχου.

**SUMMARY:** Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland is a rare benign tumor of epithelial origin. Its presence can cause functional and esthetic considerations, and it has the rare ability of malignant transformation. The pre-operative biopsy is a controversial issue. The surgical management of this tumor is the treatment of choice. Different approaches for excision of intraorbital tumors have been published, depending on the exact tumor site and size. We present a case of a pleomorphic adenoma of the lacrimal gland and we describe the surgical technique followed for its excision.

**KEY WORDS:** Pleomorphic adenoma, lacrimal gland, lateral orbitotomy.

<sup>1</sup> Ειδικεύομενος ΣΓΠΧ, Κλινική ΣΓΠΧ, ΓΝΘ «Γ. Παπανικολάου»

<sup>2</sup> ΣΓΠΧ, Επιμελητής Κλινικής ΣΓΠΧ, 424 ΓΣΝΕ

<sup>3</sup> Δρ ΣΓΠΧ, Διευθυντής Κλινικής ΣΓΠΧ, 424 ΓΣΝΕ

## ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Ο οφθαλμικός κόγχος είναι οστεΐνη κοιλότητα του σπλαγχνικού κρανίου με σημαντικό αριθμό ευγενών ανατομικών δομών, καθοριστικών για τη λειτουργία της όρασης, εκ των οποίων εξορμείται ποικιλία νεοπλασμάτων. Το 68% των ενδοκογχικών όγκων είναι καλοήθεις με συχνότερη βλάβη τη δερμοειδή κύστη (14%), ενώ συχνότερη κακοήθης βλάβη είναι το non-Hodgkin λέμφωμα (12%) (Bonavolonta και συν. 2013). Οι όγκοι του δακρυϊκού αδένα προσεγγίζουν το 9% (Shields και συν. 2004) του συνόλου των ενδοκογχικών όγκων και η συχνότητα εμφάνισής τους υπολογίζεται σε 1/1.000.000 πληθυσμού ανά έτος (von Holstein και συν. 2013). Διακρίνονται σε επιθηλιακής (45%) και μη επιθηλιακής (55%) προέλευσης (Shields και συν. 2004), με το πλειόμορφο αδένωμα, να αποτελεί τον συχνότερο καλοήθη όγκο του δακρυϊκού αδένα.

Σημαντικό ρόλο στην επιτυχή χειρουργική αντιμετώπιση των ενδοκογχικών όγκων έχει η επιλογή της κατάλληλης προσπέλασης. Ικανός αριθμός τεχνικών έχει περιγραφεί στη βιβλιογραφία για προσπέλαση όγκων που εντοπίζονται στον οφθαλμικό κόγχο (Berke 1953, Arai και συν. 1996, Khan και Varvares 2006, Moe και συν. 2007, Kumar και συν. 2015, Signorelli και συν. 2015, Seiichiro και συν. 2016). Ιδανική προσπέλαση θεωρείται αυτή που προσφέρει ασφαλή προσπέλαση προς τη βλάβη, ευρύ χειρουργικό πεδίο, άριστο κοσμητικό αποτέλεσμα και συνοδεύεται από τις λιγότερες επιπλοκές. Η οστεοτομία του έξω πλάγιου τοιχώματος του κόγχου, αποτελεί την τεχνική εκλογής για την αφαίρεση όγκων που εντοπίζονται στο έξω τμήμα του κόγχου (Berke 1953, Arai και συν. 1996, Moe και συν. 2007), όπως αυτός της περίπτωσης μας.

**Σκοπός** του παρόντος άρθρου είναι η παρουσίαση ασυνήθους περίπτωσης πλειόμορφου αδενώματος του δακρυϊκού αδένα και η περιγραφή της χειρουργικής τεχνικής που χρησιμοποιήθηκε για την αντιμετώπισή του.

## ΑΝΑΦΟΡΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Γυναίκα 43 ετών, με ελεύθερο ατομικό ιστορικό, προσήλθε στα Εξωτερικά Ιατρεία αιτιώμενη εξόφθαλμο του δεξιού οφθαλμού προοδευτικά επιδεινούμενο κατά τους τελευταίους 18 μήνες (Εικ. 1). Στα πλαίσια της διερεύνησης ζητήθηκε η εκτίμηση της ασθενούς από οφθαλμίατρο και απεικονιστικός έλεγχος με MRI. Από την οφθαλμολογική εξέταση δεν διαπιστώθηκαν άλλα παθολογικά ευρήματα, πέραν του εξόφθαλμου. Στην μαγνητική τομογραφία σπλαγχνικού κρανίου αναδείχθηκε ενδοκογχικός όγκος μεγέθους 1,7x1,7x2 εκατοστά στο άνω και έξω τμήμα του κόγχου, εκτός του κώνου, χωρίς εικόνα οστικής καταστροφής (Εικ. 2). Στην ασθενή συστήθηκε η χειρουργική εξαίρεση της βλάβης.

## Χειρουργική τεχνική

Υπό γενική αναισθησία και κατόπιν εγχύσεως αναισθη-

## INTRODUCTION

The eye orbit is a bony socket of the viscerocranium, which contains a significant number of delicate anatomical structures that play a critical role in the normal functioning of vision and can give rise to a variety of neoplasms. Of all intraorbital tumours, 68% are benign, with dermoid cyst being the most common one (14%), whereas the most common malignant lesion is non-Hodgkin lymphoma (12%) (Bonavolonta et al. 2013). Lacrimal gland tumours account for approximately 9% (Shields et al. 2004) of all intraorbital tumours, and have estimated incidence of 1/1,000,000 per year (von Holstein et al. 2013). They can be distinguished into tumours of epithelial (45%) and non-epithelial (55%) origin (Shields et al. 2004), with pleomorphic adenoma being the most common benign lacrimal gland tumour.

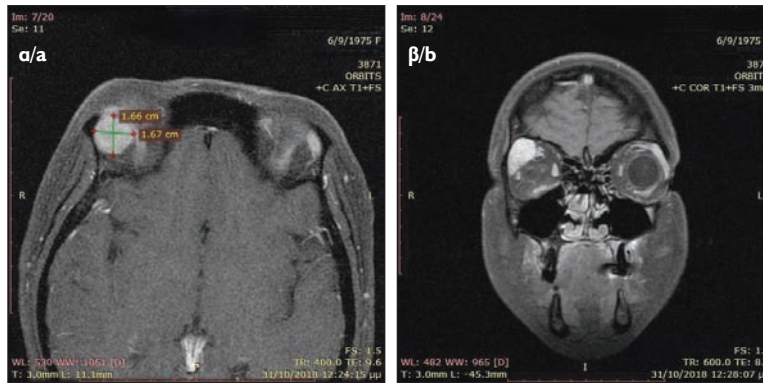
The selection of the right type of surgical approach plays a key role in the successful management of intraorbital tumours. A number of techniques have been described in the literature on accessing tumours located in the eye orbit (Berke 1953, Arai et al. 1996, Khan and Varvares 2006, Moe et al. 2007, Kumar et al. 2015, Signorelli et al. 2015, Seiichiro et al. 2016). The ideal approach offers safe access to the lesion, broad surgical field, excellent cosmetic results and has the fewest complications. Lateral orbital wall osteotomy is the technique of choice for the removal of tumours in the outer aspect of the orbit (Berke 1953, Arai et al. 1996, Moe et al. 2007), such as the one in our case.

**This article aims** to report an unusual case of pleomorphic adenoma of the lacrimal gland and present the surgical technique that was used for its management.



**Εικ. 1:** Προεγχειρητική κλινική εικόνα ασθενούς. Εμφανής ο εξόφθαλμος.

**Fig. 1:** Preoperative clinical image of the patient. The exophthalmos can be seen.



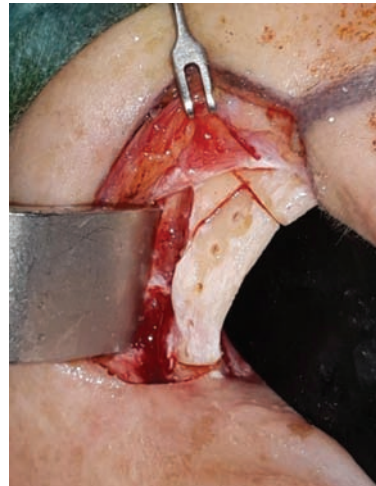
**Εικ. 2:** Προεγχειρητική μαγνητική τομογραφία T1 ακολουθία, α) εγκάρσιο επίπεδο, β) στεφανιαία ανασύνθεση. Απεικονίζεται ενδοκογχικός όγκος στρόγγυλου σχήματος με ομοιογενή ενίσχυση μετά τη χορήγηση παραμαγνητικής ουσίας.

**Fig. 2:** Preoperative MRI, T1-weighted sequence. a) axial plane, b) coronal reconstruction. A round intraorbital tumour can be seen, with homogeneous enhancement after the administration of paramagnetic substance.



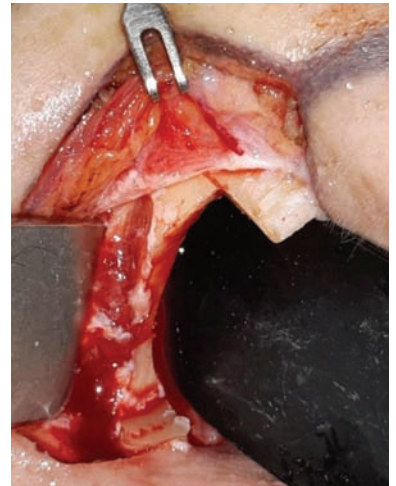
**Εικ. 3:** Προχειρουργική διαμόρφωση της πλάκας οστεοσύνθεσης (Preplating).

**Fig. 3:** Preoperative forming of the osteosynthesis plate (Preplating).



**Εικ. 4:** Οστεοτομίες του έξω πλάγιου κογχικού τοιχώματος.

**Fig. 4:** Osteotomies of the outer lateral orbital wall.



**Εικ. 5:** Το χειρουργικό πεδίο μετά την αφαίρεση του οστικού τμήματος.

**Fig. 5:** The surgical field after the removal of the bone segment.

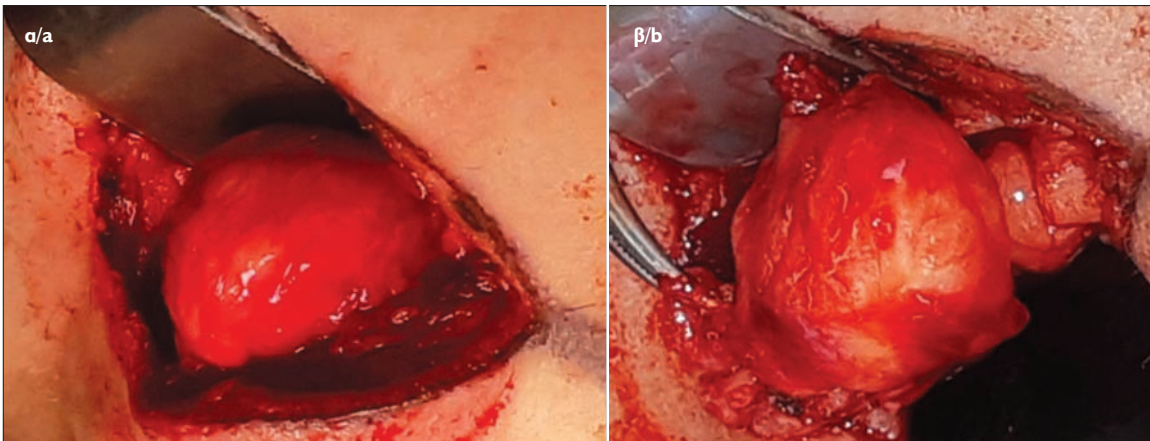
τικού διαλύματος με αγγειοσπαστικό γίνεται δερματική τομή σχήματος S επί του έξω τριτημορίου της οφρύος, κατά μήκος του έξω πλάγιου χείλους του οφθαλμικού κόγχου, που ανακάμπτει προς τα πίσω στο ύψος του άνω χείλους του ζυγωματικού τόξου. Ακολουθεί διήνιση των ιστών και αποκόλληση του περιosteού, η έκταση της οποίας καθορίζεται από το μέγεθος και τη θέση του όγκου. Έπειτα, σχεδιάζεται η επιθυμητή θέση των οστεοτομιών στο έξω πλάγιο τοίχωμα του κόγχου και εκτελείται προχειρουργική διαμόρφωση της πλάκας οστεοσύνθεσης πάχους 2mm (preplating) (Εικ. 3). Γίνεται η οστεοτομία σχήματος 'Π' (Εικ. 4), δημιουργώντας ευρύ χειρουργικό πεδίο στο περιεχόμενο του κόγχου (Εικ. 5). Στη συνέχεια τέμνεται το περίοστεο του κόγχου, αναγνωρίζεται και παρασκευάζεται ο όγκος από τους παρακείμενους υγιείς ιστούς (Εικ. 6). Μετά τη χειρουργική εξαίρεση της βλάβης, το αφαιρεθέν οστικό τμήμα επαναφέρεται και ακινητοποιείται στην αρχική του θέση (Εικ. 7). Κατά το τελικό στάδιο της επέμβασης γίνεται συρραφή του τραύματος κατά την ανατομική τάξη. Κατά την άμεση μετεγχειρητική περίοδο η ασθενής παρουσίασε αναμενόμενο περικογχικό οίδημα, περικογχικό αιμάτωμα, ήπιο περιορισμό της οφθαλμοκινητικότη-

## CASE REPORT

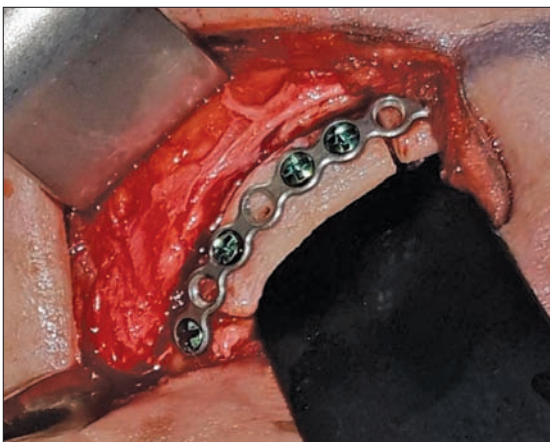
A 43-year-old female with an unremarkable medical history presented at our Outpatient Clinic due to an exophthalmos in the right eye, which had been progressively deteriorating over the course of the past 18 months (Fig. 1). As part of the investigation, the patient was assessed by an ophthalmologist and underwent imaging with MRI. The ophthalmological examination did not uncover any other pathological findings besides the exophthalmos. The viscerocranium MRI revealed an intraorbital tumour measuring 1.7x1.7x2 cm in the upper and outer part of the orbit, outside the cone, without an image of damage to the bone (Fig. 2). The patient was advised to undergo surgical removal of the lesion.

## Surgical technique

Under general anaesthesia and after the infusion of a vasopressor-containing anaesthetic solution, an S-shaped cutaneous incision was made on the outer third of eyebrow, along the outer lateral rim of the orbit, directed up and towards the back at the level of the upper rim of the zygomatic arch. After that, the tissues were dissected,



Εικ. 6: α) αναγνώριση και β) παρασκευή του όγκου.  
Fig. 6: a) identification and b) dissection of the tumour.



Εικ. 7: Ακινητοποίηση του αφαιρεθέντος οστικού τμήματος στην αρχική του θέση.  
Fig. 7: Immobilization of the removed bone segment in its original position.



Εικ. 8: Μετεγχειρητική εικόνα ασθενούς μία εβδομάδα μετά την επέμβαση.  
Fig. 8: Postoperative image of the patient, a week after the operation.

τας του δεξιού οφθαλμού και διπλωπία στις ακραίες βλεμματικές θέσεις. Πλήρης υποχώρηση των επιπλοκών διαπιστώθηκε κατά τον επανέλεγχο, ενώ και το κοσμητικό αποτέλεσμα κατά την αφαίρεση των ραμμάτων ήταν άριστο (Εικ. 8).

Από την παθολογοανατομική εξέταση του χειρουργικού παρασκευάσματος αναδείχθηκαν ευρήματα συμβατά με πλειόμορφο αδένωμα του δακρυϊκού αδένου, η εκτομή του οποίου έγινε επί υγιών ορίων.

## ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Το πλειόμορφο αδένωμα αποτελεί τον συχνότερο καλοήγη όγκο του δακρυϊκού αδένου. Η μέση ηλικία εμφάνισης είναι τα 40 έτη, χωρίς να παρατηρείται προτίμηση ανάμεσα στα δύο φύλα (Andreasen και συν. 2017). Η τυπική κλινική εικόνα χαρακτηρίζεται από εξόφθαλμο – το συνηθέστερο εύρημα κατά την κλινική εξέταση (Young

and the periosteum was detached to an extent that was determined by the size and position of the tumour. The desired position of the osteotomies was then marked on the outer lateral wall of the orbit and the 2mm-thick osteosynthesis plate was formed preoperatively (preplating) (Fig. 3). A Pi-shaped osteotomy was performed (Fig. 4), which created a broad surgical field encompassing the contents of the orbit (Fig. 5). The orbital periosteum was incised, and the tumour was identified and dissected from the surrounding healthy tissues (Fig. 6). After the surgical excision of the lesion, the removed bone part was placed back in and immobilised in its original position (Fig. 7). During the final stage of the operation, the wound was sutured in anatomical order.

In the immediate postoperative period, the patient developed the expected periorbital oedema, periorbital haematoma, mild restriction of ocular motility of the right eye globe, and diplopia in the extreme gaze positions. In

και συν. 2018, Claros και συν. 2019) –, περιορισμένη οφθαλμοκινητικότητα, διπλωπία, βλεφαρόπτωση, ανώδυνη ψηλαφητή διόγκωση του άνω βλεφάρου. Η παρουσία πόνου είναι ενδεικτική κακοήθους νόσου, αποδίδεται σε περινευρική διήθηση και συναντάται συχνότερα σε περιπτώσεις αδενοκυστικού καρκινώματος (Wright και συν. 1992). Παρατηρήθηκε πως οι ασθενείς με κακοήγη όγκο του δακρυϊκού αδένου αναζητούν ιατρική βοήθεια σε σαφώς μικρότερο χρονικό διάστημα συγκριτικά με αυτούς με καλοήθεια, γεγονός που δικαιολογείται από την εξορισμού πιο επιθετική συμπεριφορά των κακοήθων όγκων (von Holstein και συν. 2013). Η ηλικία της ασθενούς μας συμβαδίζει με τη μέση ηλικία εμφάνισης του πλειόμορφου αδενώματος, ενώ η απουσία πόνου και η βραδεία εξέλιξη των συμπτωμάτων της απομακρύνουν το ενδεχόμενο κακοήθειας.

Στον απεικονιστικό έλεγχο των όγκων του δακρυϊκού αδένου θέση έχει η αξονική (CT) και η μαγνητική (MRI) τομογραφία (Vaidhyanath και συν. 2008). Στην CT το πλειόμορφο αδένωμα απεικονίζεται ως συμπαγής, με σαφές περίγραμμα, κυκλικού ή οβάλ σχήματος μάζα. Ενόστε παρουσιάζει επασβεστώσεις και οστικό ανασχηματισμό χωρίς διήθηση του υποκείμενου οστού. Σημειώνεται πως η παρουσία επασβεστώσεων, το ανώμαλο περίγραμμα του όγκου και η οστική καταστροφή, σχετίζονται συνήθως με αδενοκυστικό καρκίνωμα (Wright και συν. 1992). Οι T1 ακολουθίες της MRI απεικονίζουν τη βλάβη με χαμηλότερο ή ίσης έντασης σήμα συγκριτικά με τους μύς και οι T2 ακολουθίες με ίσης ή υψηλότερης έντασης σήμα. Η χορήγηση παραμαγνητικής ουσίας αυξάνει μετρίως έως σημαντικά την ένταση του σήματος (Vaidhyanath και συν. 2008). Οι Rzek και συν. (2011), σε μελέτη τους διέκριναν προεγχειρητικά, με ακρίβεια που προσεγγίζει το 93%, τους καλοήθεις από τους κακοήθεις επιθηλιακούς όγκους του δακρυϊκού αδένου με βάση τα απεικονιστικά ευρήματα της MRI. Αξίζει να σημειωθεί πως μέσω της MRI δύναται να αξιολογηθεί η παρουσία περινευρικής διήθησης (Vaidhyanath και συν. 2008). Στην περίπτωσή μας, στον απεικονιστικό έλεγχο δεν διαπιστώθηκε εύρημα που να συνηγορεί υπέρ κακοήθειας.

Αμφιλεγόμενο θέμα αποτελεί η λήψη υλικού προεγχειρητικά προς διενέργεια παθολογοανατομικής ή/και κυτταρολογικής εξέτασης. Κατά ορισμένους ερευνητές (Font και Gamel 1978, Rose και Wright 1992, Currie και Rose 2007, Rose 2009), η προεγχειρητική βιοψία σχετίζεται με αυξημένα ποσοστά υποτροπής του όγκου συγκριτικά με τους ασθενείς που δεν υποβλήθηκαν σε αυτή και προτείνουν την αποφυγή της επί υποψίας πλειόμορφου αδενώματος. Άλλοι (Lai και συν. 2009), δεν παρατήρησαν διαφορά στη συχνότητα υποτροπής ανάμεσα στις δύο ομάδες ασθενών, όταν η οδός δια της οποίας έγινε η λήψη του υλικού συμπεριλήφθηκε στην εκτομή και συστήνουν τη διενέργεια FNA προεγχειρητικά. Η αναφερόμενη στη βιβλιογραφία αυξημένη συ-

the follow-up examination, it was found that the complications had resolved, and the cosmetic result was excellent upon removal of the sutures (Fig. 8).

The findings of the pathologic examination of the surgical resection specimen were consistent with a pleomorphic adenoma of the lacrimal gland, which had been excised within clear margins.

## DISCUSSION

Pleomorphic adenoma is the most common benign tumour of the lacrimal gland. It typically presents in patients with a mean age of 40 years, with no gender predilection (Andreasen et al. 2017). The typical clinical image involves exophthalmos –the most common finding upon clinical examination (Young et al. 2018, Claros et al. 2019)–, restricted ocular motility, diplopia, eyelid ptosis, painless palpable swelling of the upper eyelid. Pain is indicative of malignancy, has been associated with perineural infiltration, and is mostly present in cases of adenoid cystic carcinoma (Wright et al. 1992). It has been observed that patients with malignant lacrimal gland tumours seek medical care within a much shorter amount of time compared to those with benign tumours, which can be explained by the fact that malignant tumours by definition have a more aggressive behaviour (von Holstein et al. 2013). The age of our patient is consistent with the mean age of onset of pleomorphic adenomas, whereas the absence of pain and slow development of her symptoms rule out the possibility of malignancy.

CT and MRI are both used for the imaging assessment of tumours of the lacrimal gland (Vaidhyanath et al. 2008). The CT image appearance of pleomorphic adenoma is that of a compact, well-demarcated, round or oval-shaped mass. It occasionally contains calcifications and bone remodelling without infiltration of the underlying bone. It should be noted that the presence of calcifications, irregular tumour outline and bone destruction are usually associated with adenoid cystic carcinomas (Wright et al. 1992). On T1-weighted MRI sequences, the lesion appears at a lower or equal signal intensity as muscles and on T2-weighted sequences at equal or higher signal intensity. The administration of paramagnetic substance increases the strength of the signal moderately to significantly (Vaidhyanath et al. 2008). In their study, Rzek et al. (2011) were able to preoperatively distinguish benign from malignant epithelial tumours of the lacrimal gland based on the imaging findings of MRI, with an accuracy of close to 93%. It is worth mentioning here that MRI can also help assess the presence of perineural infiltration (Vaidhyanath et al. 2008). In our case, imaging did not reveal any findings that would point in the direction of malignancy.

The question of collecting samples preoperatively to perform the pathologic and/or cytological examination is controversial. Some researchers (Font and Gamel 1978, Rose

χνότητα υποτροπής μετά από λήψη υλικού για βιοψία, σε συνδυασμό με τα κλινικά και απεικονιστικά ευρήματα που ήταν ενδεικτικά καλοήθειας, μας οδήγησαν στην απόφαση για χειρουργική εξαίρεση του όγκου χωρίς να προηγηθεί βιοψία.

Η πρόγνωση των ασθενών με πλειόμορφο αδένωμα είναι πολύ καλή, αν και υπάρχει πιθανότητα τοπικής υποτροπής - ιδίως σε περιπτώσεις ατελούς εξαίρεσης του όγκου - καθώς και κίνδυνος κακοήθους εξαλλαγής. Ο κίνδυνος αυτός είναι αυξημένος σε υποτροπιάζοντα αδενώματα και σε αδενώματα που παραμένουν για μεγάλο χρονικό διάστημα (Weis και συν. 2009). Για τους λόγους αυτούς η αντιμετώπιση του πλειόμορφου αδενώματος είναι η πλήρης χειρουργική εκτομή του και των τυχόν θυγατέρων κύστεων στην περιφέρεια του όγκου, χωρίς να θιγεί η ακεραιότητα της κάψας του.

Πλήθος τεχνικών για την προσπέλαση όγκων του οφθαλμικού κόγχου έχει περιγραφεί, με την επιλογή της καταλληλότερης να βασίζεται στη θέση του όγκου, στο μέγεθός του, καθώς και στην αναμενόμενη παθολογία (Leone και Wissinger, 1988). Η οστεοτομία του έξω πλάγιου τοιχώματος του κόγχου εξασφαλίζει άριστη προσπέλαση στο έξω τμήμα του κόγχου με σχετικά λίγες επιπλοκές και προτιμάται από την διεπιπεφυκοτική προσπέλαση (περιορισμένο χειρουργικό πεδίο) και την ενδοκράνια προσπέλαση (περισσότερες επιπλοκές) (Hali και συν. 2011). Στις επιπλοκές που έχουν περιγραφεί στη βιβλιογραφία αναφέρονται η ενδοκογχική αιμορραγία, η λοίμωξη του κόγχου, ενόφθαλμος, διαταραχή της οφθαλμοκινητικότητας συνήθως λόγω βλάβης του έξω ορθού μυός και εξαιρετικά σπάνια η τύφλωση εξαιτίας σημαντικής έλξης, πίεσης και διαταραχής της αιμάτωσης του οπτικού νεύρου (Arai και συν. 1996, Kumar και συν. 2014, Hali και συν. 2011). Το μετεγχειρητικό αισθητικό αποτέλεσμα κατά κανόνα είναι ικανοποιητικό, αν και δεν μπορεί να αποκλειστεί η παραμονή δύσμορφης ουλής. Η διεπιπεφυκοτική προσπέλαση αλλά και ενδοσκοπικές τεχνικές προσφέρουν άριστο αισθητικό αποτέλεσμα, προσφέροντας όμως περιορισμένο χειρουργικό πεδίο και ενδείκνυται σε μικρού μεγέθους όγκους που εντοπίζονται σε συγκεκριμένες θέσεις (Moe και συν. 2007, Signorelli και συν. 2015).

**Συμπερασματικά**, το πλειόμορφο αδένωμα είναι ασυνήθης ενδοκογχικός όγκος με εξαιρετική πρόγνωση και χαμηλό ποσοστό υποτροπής, αν εξαιρεθεί επί υγιών ορίων. Η προεγχειρητική διενέργεια βιοψίας δεν ενθαρρύνεται, καθώς έχει συσχετιστεί με αυξημένη πιθανότητα υποτροπής της βλάβης. Η οστεοτομία του έξω πλάγιου τοιχώματος του κόγχου αποτελεί ασφαλή επιλογή για την προσπέλαση και εκτομή όγκων του δακρυϊκού αδένου, καθώς προσφέρει ευρύ χειρουργικό πεδίο, σχετίζεται δε με λίγες επιπλοκές και άριστα αισθητικά αποτελέσματα.

and Wright 1992, Cumie and Rose 2007, Rose 2009) note that preoperative biopsy has been associated with an increased rate of tumour recurrence compared to no biopsy, and argue against it when there is a suspicion of pleomorphic adenoma. Others (Lai et al. 2009), did not observe any difference in terms of recurrence rates between the two different groups of patients, when the route through which the sample was collected had been included in the excision, and recommend that FNA is carried out preoperatively. The increased recurrence rate after the collection of biopsy material, as reported in the relevant literature, in combination with the clinical and imaging results, which indicated a benign tumour, led to our decision to proceed to the surgical excision of the tumour without prior biopsy. The prognosis of patients with pleomorphic adenoma is very good, however there is a risk of local recurrence – especially in cases of incomplete tumour removal – as well as a risk of malignant transformation. This risk is elevated in recurring adenomas and adenomas that have remained in situ for long periods of time (Weis et al. 2009). Therefore, the treatment of pleomorphic adenoma should involve its complete surgical removal together with any related cysts on the periphery of the tumour, while preserving the integrity of its capsule.

Several techniques have been described that can be used to access tumours of the orbit, and the decision on which one is the most suitable one depends on the position of the tumour, its size and expected pathology (Leone and Wissinger, 1988). Osteotomy of the outer lateral orbital wall can ensure excellent access to the inner part of the orbit with relatively few complications, and is preferred over a transconjunctival approach (limited surgical field), or an intracranial approach (more complications) (Hali et al. 2011). The complications that have been reported in the literature include intraorbital haemorrhage, orbital inflammation, enophthalmos, ocular motility disturbance usually due to lateral rectus muscle injury, and very rarely blindness due to significant stretching, compression or disruption of blood supply to the optic nerve (Arai et al. 1996, Kumar et al. 2014, Hali et al. 2011). The post-operative aesthetic result is generally satisfactory, however the possibility of a permanent dysmorphic scar cannot be ruled out. The transconjunctival approach, as well as endoscopic techniques, can offer an excellent aesthetic result, however they only provide a limited surgical field and are indicated for small tumours in specific sites (Moe et al. 2007, Signorelli et al. 2015).

**In conclusion**, pleomorphic adenoma is an uncommon intraorbital tumour with excellent prognosis and low rates of recurrence, when excised within clear margins. Preoperative biopsies are not encouraged, since they have been associated with an increased rate of lesion recurrence. Osteotomy of the outer lateral orbital wall is a safe option for accessing and excising lacrimal gland tumours, as it offers a broad surgical field, and is associated with few complications and excellent aesthetic results.

## ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

- Andreasen S, Esmali B, von Holstein SL, Mikkelsen LH, Rasmussen PK, Heegaard S: An Update on Tumors of the Lacrimal Gland, *Asia-Pac J Ophthalmol* 6:159–172, 2017
- Arai H, Sato K, Katsuta T, Rhoton A: Lateral approach to intraorbital lesions: Anatomic and surgical considerations. *Neurosurgery* 39: 1157–1163, 1996
- Berke RN: A modified Kronlein operation. *Trans Am Ophthalmol Soc* 51:193–231, 1953
- Bonavolontà G, Strianese D, Grassi P, Comune C, Tranfa F, Uccello G, Iuliano A: An Analysis of 2,480 Space-Occupying Lesions of the Orbit From 1976 to 2011. *Ophthalm Plast Reconstr Surg* 29:79–86, 2013
- Claros P, Choffor-Nchinda E, Lopez-Fortuny M, Sobolewska AZ, Claros A: Lacrimal gland pleomorphic adenoma: a review of 52 cases, 15-year experience. *Acta Otolaryngol.* 139(1): 100–104, 2019
- Currie ZI, Rose GE: Long-term risk of recurrence after intact excision of pleomorphic adenomas of the lacrimal gland. *Arch Ophthalmol* 125: 1643–1646, 2007
- Font RL, Gamel JW: Epithelial tumors of the lacrimal gland: an analysis of 265 cases. In: Jakobiec FA (ed). *Ocular and Adnexal Tumors*. Aesculapius: Birmingham, AL, pp 787–805, 1978
- Halli RC, Mishra S, Kini YK, Kharkar VR, Hebbale MA: Modified Lateral Orbitotomy Approach: A Novel Technique in the Management of Lacrimal Gland Tumors. *The Journal of Craniofacial Surgery* 22(3):1035–1038, 2011
- Khan A, Varvares M: Traditional Approaches to the Orbit. *Otolaryngol Clin N Am* 39:895–909, 2006
- Kumar LK, Vinod M, Varun Menon P: Lateral orbital approach: Gateway to intraorbital lesions. *Natl J Maxillofac Surg.* 5(2) 217–220, 2014
- Kumar S, Kurien N, Vinod M, Menon V, Kham S: A Sidewalk into the Lateral Orbit. *Case Studies in Surgery.* 1 (1), 2015
- Lai T, Prabhakaran VC, Malhotra R, et al: Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland: is there a role for biopsy? *Eye (Lond).* 23:2–6, 2009
- Leone C, Wissinger J: Surgical approach to diseases of the orbital apex. *Ophthalmology.* 95:391–7, 1988
- Moe K, Jothi S, Stern R, Gassner H: Lateral Retrocanthal Orbitotomy: A Minimally Invasive, Canthus Sparing Approach. *Arch Facial Plast Surg.* 9(6):419–426, 2007
- Razek AA, Elkhamary S, Mousa A: Differentiation between benign and malignant orbital tumors at 3-T diffusion MR-imaging. *Neuroradiology* 53:517–522, 2011
- Rose GE, Wright JE: Pleomorphic adenoma of the lacrimal gland. *Br J Ophthalmol* 76: 395–400, 1992
- Rose GE: To crash or not to crash? Probability in the management of benign lacrimal gland tumours. *Eye* 23:1625–1628, 2009
- Seiichiro M, Yoshinori H, Kentaro H, Naokatu S: Superolateral Orbitotomy for Intraorbital Tumors: Comparison with the Conventional Approach. *J Neurol Surg B* 77:473–478, 2016
- Shields JA, Shields CL, Scartozzi R: Survey of 1264 patients with orbital tumors and simulating lesions: the 2002 Montgomery Lecture, part 1. *Ophthalmol* 111:997–1008, 2004
- Signorelli F, Anile C, Rigante M, Paludetti G, Pompucci A, Mangiola A: Endoscopic treatment of orbital tumors. *World J Clin Cases.* March 16; 3(3): 270–274, 2016
- Vaidyanath R, Kirke R, Brown L, et al: Lacrimal fossa lesions: pictorial review of CT and MRI features. *Orbit.* 27:410–418, 2008
- von Holstein SL, Coupland SE, Briscoe D, et al: Epithelial tumours of the lacrimal gland: a clinical, histopathological, surgical and oncological survey. *Acta Ophthalmol Scand.* 91:195–206, 2013
- von Holstein SL, Therkildsen MH, Prause JU, et al: Lacrimal gland lesions in Denmark between 1974 and 2007. *Acta Ophthalmol* 91:349–354, 2013
- Weis E, Rootman J, Joly TJ, Berean KW, Al-Katan HM, Pasternak S, Bonavolontà G, Strianese D, Saeed P, Feldman KA, Vangveeravong S, Lapointe JS, White VA: Epithelial lacrimal gland tumors: pathologic classification and current understanding. *Arch Ophthalmol* 127(8): 1016–1028, 2009
- Wright JE, Rose GE, Garner A: Primary malignant neoplasms of the lacrimal gland. *Br J Ophthalmol.* 76:401–407, 1992
- Young SM, Kim YD, Shin HJ, et al: Lacrimal gland pleomorphic adenoma and malignant epithelial tumours: clinical and imaging differences. *Br J Ophthalmol.* 103(2): 264–268, 2019

Διεύθυνση επικοινωνίας:

**Δημήτριος Δεληγιαννίδης**

424 ΓΣΝΕ,

Περιφερειακή Οδός Ν. Ευκαρπία,

56429 Θεσσαλονίκη

Τηλ.: +30 6934 361002

e-mail: deligiandim@gmail.com

Address:

**Dimitrios Deligiannidis**

424 General Military Hospital of Thessaloniki,

Ring road N. Eukarpia,

56429 Thessaloniki, Greece

Tel.: +30 6934 361002

e-mail: deligiandim@gmail.com