Хирургическое лечение эпибульбарных пороков развития











С.В. Саакян1,2

Р.А. Тацков¹

О.А. Иванова¹

А.Ю. Цыганков^{1,2}

А.М. Майбогин¹

¹ ФГБУ «Московский научно-исследовательский институт глазных болезней им. Гельмгольца» Министерства здравоохранения Российской Федерации ул. Садовая-Черногрязская, 14/19, Москва, 105062, Российская Федерация

² ГБОУ ВПО «Московский государственный медико-стоматологический университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации ул. Делегатская, 20, стр. 1, Москва, 127473, Российская Федерация

РЕЗЮМЕ

Офтальмология. 2019;16(3):289-295

Цель: анализ результатов хирургического лечения пациентов с эпибульбарными пороками развития. Пациенты и методы. В исследование были включены 126 пациентов с предварительным диагнозом «эпибульбарное новообразование», получавшие лечение с января 2013 по декабрь 2017 года. Пациенты мужского пола составили 57,9 % (n = 73), женского — 42,1 % (n = 53), возрастной диапазон — от 6 месяцев до 82 лет (13,0 ± 11,4). Всем пациентам проведено комплексное офтальмологическое обследование и хирургическое лечение с гистологической верификацией полученного материала. В случае дефицита собственных тканей при закрытии конъюнктивального дефекта проводили пластику с применением амниотической мембраны. Результаты. У 67 (53,2 %) пациентов был установлен диагноз дермоидного образования конъюнктивы и/или роговицы, в 14,3% — диагноз липодермоида с распространением в своды век. У 7 пациентов наблюдалось комбинированное поражение, из них в 4 случаях с синдромом Goldenhar, в 1 случае с синдромом Jadassohn и в 2 случаях без синдромальных нарушений. У 10 пациентов отмечали мультицентричное поражение с формированием нескольких дермоидов. Хористомы различного строения определены у 41 пациента (32,5%). Осложнения хирургического лечения включали ограничение подвижности глаза (п = 9), опущение верхнего века (n = 7), диплопию (n = 4), деформацию глазной щели (n = 3), перфорацию роговицы (n = 1), симблефарон (n = 1) и завороты нижнего века (n = 1), что потребовало проведения дополнительных хирургических вмешательств с благоприятным функциональным исходом. Заключение. Диагностика врожденных эпибульбарных поражений органа зрения требует комплексного офтальмологического обследования для определения распространенности процесса, объема поражения с целью планирования сроков и тактики хирургического лечения. Врожденные эпибульбарные пороки органа зрения подлежат хирургическому лечению при росте образования, хроническом воспалении, косметической неудовлетворенности и распространении на центральные отделы роговицы. Применение амниотической мембраны улучшает нормальную эпителизацию и уменьшает степень послеоперационной рубцовой деформации.

Ключевые слова: дермоид, липодермоид, хористома, порок развития, эпибульбарное новообразование

Для цитирования: Саакян С.В., Тацков Р.А., Иванова О.А., Цыганков А.Ю., Майбогин А.М. Хирургическое лечение эпибульбарных пороков развития. *Офтальмология*. 2019;16(3):289–295. https://doi.org/10.18008/1816-5095-2019-3-289-295

Прозрачность финансовой деятельности: Никто из авторов не имеет финансовой заинтересованности в представленных материалах или методах

Конфликт интересов отсутствует

Surgical Treatment of Epibulbar Malformations

S.V. Saakyan^{1,2}, R.A. Tatskov¹, O.A. Ivanova¹, A.Yu.Tsygankov^{1,2}, A.M. Maybogin¹

¹ Moscow Helmholtz Research Institute of Eye Diseases
Sadovaya-Chernogryazskaya str., 14/19, Moscow, 105062, Russia

² Moscow State Medical Stomatological University
Delegatskaya str., 20/1, Moscow, 127473, Russia

ABSTRACT

Ophthalmology in Russia. 2019;16(3):289-295

Aim. Analysis of the results of surgical treatment in patients with epibulbar malformations. Patients and Methods. The study included 126 patients with a preliminary diagnosis of "epibulbar neoplasm", who received treatment from January 2013 to December 2017. Male patients were 57.9 % (n = 73), female — 42.1 % (n = 53). The age range was from 6 months to 82 years (13.0 ± 11.4). All patients underwent complex ophthalmological examination and surgical treatment with histological verification of the obtained material. In case of deficiency of own tissues, when the conjunctival defect was closed, plastic was made using an amniotic membrane. Results. 67 (53.2 %) patients had a diagnosis of dermoid of the conjunctiva and / or cornea. In 14.3 % of cases, a diagnosis of lipodermoid with spreading into the eyelids fornix was established. In 7 patients there was a combined lesion, of them in 4 cases with Goldenhar syndrome, 1 case with Jadassohn syndrome and in 2 cases without syndromic disorders. In 10 patients, multicentric lesions were noted with the formation of several dermoids. Choristomas of different structures were identified in 41 patients (32.5 %). Complications of surgical treatment included limitation of eye mobility (n = 9), ptosis of the upper eyelid (n = 7), diplopia (n = 4), ocular deformity (n = 3), corneal perforation (n = 1), symblepharon (n = 1) and entropion (n = 1), which required additional surgical interventions with a favorable functional outcome. Conclusions. Diagnosis of epibulbar malformations requires a comprehensive ophthalmological examination to determine the prevalence of the process, the extent of the lesion in order to plan the timing and tactics of surgical treatment. Congenital epibulbar malformations of the eye are subject to surgical treatment with the growth of lesion, chronic inflammation, cosmetic dissatisfaction and spread to the central parts of the cornea. The use of the amniotic membrane improves normal epithelization and reduces the degree of postoperative scar deformation.

Keywords: dermoid, lipodermoid, choristoma, malformation, epibulbar tumor

For citation: Saakyan S.V., Tatskov R.A., Ivanova O.A., Tsygankov A.Yu., Maybogin A.M. Surgical Treatment of Epibulbar Malformations. *Ophthalmology in Russia*. 2019;16(3):289–295. https://doi.org/10.18008/1816-5095-2019-3-289-295

Financial Disclosure: No author has a financial or property interest in any material or method mentioned

There is no conflict of interests

ВВЕДЕНИЕ

Эпибульбарные пороки развития представляют собой врожденные доброкачественные образования, которые в зависимости от локализации могут влиять как на косметические особенности пациентов, так и на остроту зрения, и приводить к развитию астигматизма, нарушениям зрительной оси и жировой инфильтрации в роговице [1]. В офтальмоонкологической практике подобные образования встречаются часто, прежде всего в педиатрической популяции. Опухоли придаточного аппарата глаза составляют около 56 % от всей онкопатологии органа зрения. Из них 40 % приходится на эпибульбарные образования и 16 % на образования век. Большинство эпибульбарных образований представлены опухолями доброкачественного генеза, из которых на долю пороков развития приходится 11 % [2, 3]. Первые работы, посвященные данной патологии, относятся к 60-70-м годам XX века, и включают описание клинических наблюдений за пациентами с лимбальными дермоидами и эпибульбарными костными хористомами [4-6]. Образования, согласно мнению ряда авторов, состоят из разросшихся эпидермальных придатков, соединительной ткани, кожи, жировой ткани, потовых и слезных желез, а также нервной ткани, расположенной частично над склерой и частично под ней [1, 4-6]. Клинически дермоиды манифестируют как образования куполообразной формы с кератинизированной поверхностью, иногда содержащие волосяные фолликулы и ресницы. Ассоциированные с дермоидами патологические состояния включают колобомы век, изменения слезных желез, а также стафиломы роговицы и склеры [1].

В 1972 году S.N. Вепјатіп и Н.F. Allen предложили эмбриологическую классификацию дермоидов в зависимости от особенностей формирования органа зрения [1]. В дальнейшем данная классификация была пересмотрена, а ей на смену пришла клинико-генетическая, разработанная С. Таѕѕе и соавт. в 2005 году. Авторы выделили 3 группы окуло-аурикуло-вертебральных заболеваний, ассоциированных с основными клиническими признаками пороков развития придаточного аппарата глаза [7]. Попытки клинико-генетического классифицирования данной патологии предпринимались и в нашей стране. О.В. Хлебникова и соавт. описали собственный опыт наблюдения за пациентами с врожденными пороками придаточного аппарата глаза [8].

Необходимо отметить, что эпибульбарные пороки развития проявляются как самостоятельная патология (дермоиды, хористомы) [9–11], так и вследствие синдромных нарушений [8]. Хористомы — термин, используемый для обозначения опухолеподобного узловатого образования, источником развития которого является отщепившаяся в эмбриональном периоде и расположенная в необычном месте группа клеток или участок ткани.

В отличие от гамартромы, ткань, образующая хористому, в норме в данных участках не наблюдается [10, 11].

Наиболее часто встречаемой патологией является синдром Goldenhar, окулоаурикуловертебральная дисплазия с гемифациальной микросомией. Синдром был впервые описан в 1952 году французским офтальмологом Морисом Голдехаром. Заболеваемость синдромом Goldenhar составляет 1:3500-5600 новорожденных. Точная этиология заболевания неизвестна, к вероятным причинам относят нарушения бластогенеза в эмбриональном периоде [12]. Клинические особенности этого синдрома включают в себя такие изменения, как микрофтальмия, эпибульбарные дермоиды, липодермоиды, колобома век; предушные придатки, снижение слуха, гипоплазия скуловых, нижнечелюстных и верхнечелюстных костей. Нередко сопутствующими проявлениями заболевания являются нарушения опорно-двигательного аппарата, пороки развития сердечно-сосудистой, центральной нервной и мочеполовой системы. Умственную отсталость отмечают в 5-15 % случаев. В доступной литературе описаны лишь единичные случаи данного синдрома с позиции офтальмолога [12-15].

Другим редким наследственным синдромом является синдром Jadassohn (также Naegeli Franceschetti Jadassohn), клинически проявляющийся наличием дермоидов и липодермоидов, а также множественных невоидных образований на волосистой части головы. У 20 % пациентов с сальными невусами развивается карцинома базальных клеток в пораженной области. У пациентов отмечают также аллопецию пораженных участков головы и пигментные «географические» пятна [16].

J.W. Delleman и соавт. в 1981 году впервые описали у двух родных братьев окулоцереброкутанный синдром (ОЦКС) — синдром орбитальной кисты, анофтальм или микрофтальм, эпибульбарные дермоиды, гипоплазию кожи в сочетании с аномалиями мозга [17, 18]. ОЦКС — редкое генетическое заболевание с частотой встречаемости 1:500 000 новорожденных. В литературе доступны единичные работы, посвященные описанию случаев данного синдрома с учетом патологии органа зрения (множественные эпибульбарные дермоиды) [18].

Диагностика эпибульбарных пороков развития, помимо визуального осмотра и биомикроскопии, включает и применение высокотехнологичных методов, в частности, оптической когерентной томографии (ОКТ) [19, 20]. С помощью ОКТ переднего отрезка глаза возможна визуализация поперечных срезов структур глаза с высоким разрешением (18 мкм), что делает метод незаменимым в планировании объема хирургического вмешательства. ОКТ изображения могут быть получены в серой или цветовой шкале. Цветовая шкала в ОКТ приборах часто используется для лучшего распознавания тонких структур изображения. Основным показанием к выполнению ОКТ служит необходимость проведения дифференциальной диагностики с другими поверхностными новообразова-

ниями, включая невусы конъюнктивы, воспалительные изменения и злокачественные опухоли. Так, О.А. Ивановой и С.В. Саакян определен ряд характерных томографических признаков, позволяющих выявить образование конъюнктивы и определить его размеры, структуру, плотность и инвазию в подлежащие ткани. Совокупность клинической картины, анамнеза и данных ОКТ позволяет предположить морфологический диагноз при новообразованиях конъюнктивы [20]. С целью уточнения диагноза применяются и иные диагностические методы, такие как эхография, КТ и МРТ [3].

Лечение данной патологии является хирургическим и включает полное удаление образования [21]. Авторами описаны различные модификации хирургической техники, включая корнео-склеро-конъюнктивопластику и применение регенеративных материалов [22, 23]. В целом, несмотря на достаточно широкое распространение изучаемой патологии в популяции, в литературе доступны лишь единичные статьи, обобщающие клинический опыт диагностики и лечения большой группы пациентов.

Цель — анализ результатов хирургического лечения пациентов с эпибульбарными пороками развития.

ПАЦИЕНТЫ И МЕТОДЫ

В исследование были включены 126 пациентов с предварительным диагнозом «эпибульбарное новообразование», получавшие лечение в отделе офтальмоонкологии и радиологии МНИИ ГБ им. Гельмгольца в период с января 2013 по декабрь 2017 года. Критерием отбора пациентов в исследование служило наличие патоморфологического диагноза «дермоид», «липодермоид» или «хористома». Пациенты мужского пола составили 57,9 % (n = 73), женского — 42,1 % (n = 53), возрастной диапазон — от 6 месяцев до 82 лет (13,0 \pm 11,4).

Всем пациентам проведено комплексное офтальмологическое обследование, включавшее стандартные и специальные методы (В-сканирование с ультразвуковой доплерографией (рис. 1), ОКТ (рис. 2), по показаниям



Рис. 1. Дермоид роговицы по данным В-сканирования (отмечено желтым)

Fig.1. Corneal dermoid according to B-scan (pointed yellow)

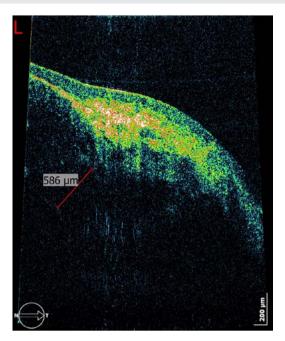


Рис. 2. ОКТ картина дермоида роговицы

Fig. 2. OCT of corneal dermoid

КТ (рис. 3) и МРТ. Во всех случаях проведено хирургическое лечение (иссечение образования) с гистологической верификацией полученного материала в отделе патологической анатомии и гистологии МНИИ ГБ им. Гельмгольца.

Статистический анализ. Размер выборки предварительно не рассчитывали. Статистическая обработка результатов исследования выполнена с использованием приложения Microsoft Excel 2010 и статистической программы Statistica 10.1 (StatSoft, США). Проведен расчет среднего арифметического значения (М), стандартного отклонения от среднего арифметического значения (\mathbf{m}_1), минимальных (\mathbf{min}) и максимальных (\mathbf{max}) значений, размаха вариации Rv (разность \mathbf{max} - \mathbf{min}).



Рис. 4. Билатеральный дермоид

Fig. 4. Bilateral dermoid

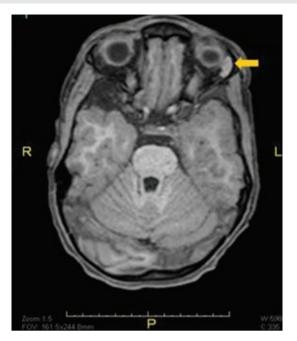


Рис. 3. КТ с визуализацией липодермоида (отмечено желтым)

Fig. 3. CT with lipodermoid visualization (pointed yellow)

РЕЗУЛЬТАТЫ И ОБСУЖДЕНИЕ

За период с 2013 по 2018 год в МНИИ ГБ имени Гельмгольца на базе офтальмологического отдела по лечению онкологических заболеваний глаз было пролечено 126 пациентов с подозрением на эпибульбарные пороки развития.

У 67 (53,2 %) пациентов был установлен диагноз «дермоидное образование конъюнктивы и/или роговицы». Для дермоидов характерно разнообразие тканевых структур, таких как дерма, фолликулы волос и сальные железы, с наиболее частой локализацией в наружном отделе глаза в зоне лимба с распространением на роговицу. Поражение чаще было монокулярным, однако отмечены и бинокулярные образования (рис. 4). Также имелись случаи дермоидов наружного угла век. Гистологически дермоидная опухоль является некистозным пороком развития и характеризуется формированием тканей, напоминающих по своему строению кожу с подлежащей фиброзно-жировой тканью, волосяными фолликулами, сальными и потовыми железами в различных количественных соотношениях (рис. 5).

В 14,3 % случаев (n = 18) установлен диагноз липодермоида с распространением в своды век. У 7 (5,5 %) пациентов наблюдалось комбинированное поражение, из них в 4 (3,2 %) случаях с синдромом Goldenhar, в 1 случае (0,8 %) с синдромом Jadassohn и в 2 случаях (1,6 %) без синдромальных нарушений. У 10 пациентов (7,9 %) определено мультицентричное поражение с формированием нескольких дермоидов. Клинически липодермоид отличается от дермоида. Опухоль не имеет капсулы, образование чаще локализуется в наружных отделах глаза, распространяясь в своды, а также в передние отделы

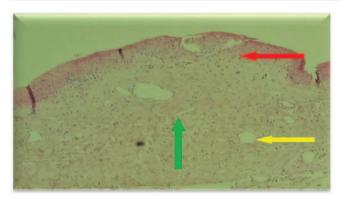


Рис. 5. Гистологический препарат дермоида конъюнктивы. Выделены гиперплазированная зрелая фиброзная ткань (зеленая стрелка), кровеносные сосуды стромы (желтая стрелка), покровный эпителий конъюнктивы (красная стрелка)

Fig. 5. Histological picture of conjunctival dermoid. Hyperplastic fibrous tissue (green arrow), blood vessels of the stroma (yellow arrow), conjunctival surface (red arrow) are pointed

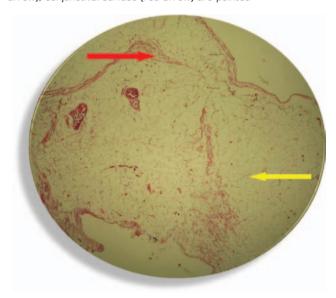


Рис. 6. Гистологический препарат липодермоида конъюнктивы и роговицы. Выделены тонкие фиброзные прослойки (красная стрелка), жировая ткань (желтая стрелка)

Fig. 6. Histological picture of conjunctival and corneal lipodermoid. Isolated thin fibrous layers (red arrow), adipose tissue (yellow arrow) are pointed

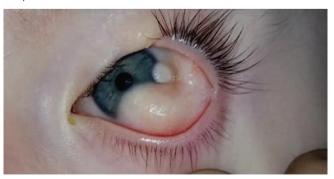


Рис. 7. Визуализация хористомы конъюнктивы и роговицы

Fig. 7. Conjunctival and corneal choristoma visualization

орбиты с вовлечением наружной прямой мышцы и слезной железы. При гистологическом исследовании липодермоид проявляется в виде валикообразного утолщения и состоит из долек жировой клетчатки, разделенной соединительнотканными прослойками, и имеет сходную морфологическую картину с липомой (рис. 6).

Хористомы различного строения определены у 41 пациента (32,5 %). Клинически хористомы имеют схожий с липодермоидами внешний вид (рис. 7). Гистологическая картина сложных хористом представлена сочетанием различных эктопических тканевых структур. Хористома может напоминать солидный дермоид, но при этом содержать элементы слезной железы, хрящевые структуры и мышечные волокна (рис. 8).

Во всех случаях проведено хирургическое лечение (удаление образования с использованием микрохирургической техники). В случае дефицита собственных тканей при закрытии конъюнктивального дефекта проводили пластику с применением амниотической мембраны. В настоящее время вопрос о сроках проведения хирургического лечения остается дискутабельным, однако нами определен ряд факторов, не зависящих от возраста пациента. К таким факторам относятся наличие роста образования, его распространение на оптическую зону, хроническое рецидивирующее воспаление, деформация и/или смещение глаза, косоглазие, а также в ряде случаев косметическая неудовлетворенность родителей. Осложнения хирургического лечения включали: ограничение подвижности глаза (n = 9; 7,1 %), опущение верхнего века (птоз) (n = 7; 5,5 %), диплопию (n = 4; 3,2 %), деформацию глазной щели (n = 3; 2,4 %), перфорацию роговицы (n = 1; 0,79 %), наличие симблефарона (n = 1; 0,79 %) и заворотов нижнего века (n = 1; 0,79 %). Это потребовало проведения дополнительных хирургических

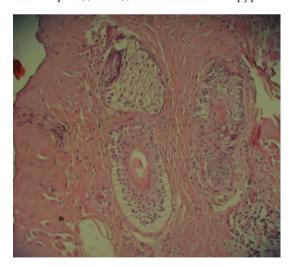


Рис. 8. Морфологическая картина хористомы конъюнктивы и роговицы. Визуализируются сальные железы и волосяные фолликулы, окруженные фиброзной тканью

Fig. 8. Morphological picture of the conjunctival and cornea choristoma. Sebaceous glands and hair follicles, surrounded by fibrous tissue are visualized

293

вмешательств, обеспечивших благоприятный функциональный исход.

Эпибульбарные пороки развития (лимбальные дермоиды) — доброкачественные врожденные образования, состоящие из нормальных клеток в нетипичной для них локализации и приводящие к снижению зрительных функций [24]. Частота лимбальных дермоидов составляет, по разным данным, от 1 до 3 случаев на миллион населения по обращаемости [25].

Морфологически данные новообразования представлены 4 основными типами: дермоид, липодермоид, сложная хористома и эпибульбарная костная хористома [26]. В большинстве случаев отмечаются дермоиды, состоящие из солидной хористомы с эпителием на поверхности, похожим на эпидермис и дермис с волосяными фолликулами [27, 28]. Липодермоиды отличает поверхностное расположение и присутствие жировой ткани, при этом волосяные фолликулы отсутствуют [28]. Сложные хористомы содержат ткань слезной железы, гладких мышц и нервную ткань [29]. Эпибульбарные костные хористомы представляют собой небольшие солидные хорошо очерченные беловато-красные образования, расположенные за лимбом и между верхней и латеральной прямой мышцей [30]. В нашей работе в 53,2 % случаев были представлены дермоиды, а частота выявления хористом различного строения составила 32,5 %. Реже всего, по данным морфологического исследования, определялись липодермоиды (14,3 %).

Хирургическое удаление дермоидов, в том числе с применением амниотической мембраны и других регенеративных материалов, остается ведущим методом лечения данной патологии [23, 31]. Имеются работы, посвященные результатам проведения послойной керато-

пластики для замещения обширного дефекта роговицы после удаления дермоидов [32]. В нашем исследовании во всех случаях достигнут хороший функциональный и косметический эффект, при этом при развитии послеоперационных осложнений у части пациентов проводили повторные хирургические вмешательства.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

В данной статье представлен анализ собственных данных хирургического лечения 126 пациентов с эпибульбарными врожденными пороками развития. Диагностика врожденных эпибульбарных образований органа зрения не представляет трудностей, однако требует комплексного офтальмологического обследования для определения распространенности процесса и объема поражения с целью планирования сроков и тактики хирургического лечения. Врожденные пороки органа зрения подлежат хирургическому лечению при росте образования, хроническом воспалении, косметической неудовлетворенности и распространении на центральные отделы роговицы, а также подлежат обязательному гистологическому исследованию для верификации характера и распространенности процесса. Сроки хирургического лечения определяются индивидуально. Применение амниотической мембраны улучшает нормальную эпителизацию и уменьшает степень послеоперационной рубцовой деформации.

УЧАСТИЕ АВТОРОВ:

Саакян С.В. — научное редактирование;

Тацков Р.А. — набор материала, написание текста, подготовка иллюстраций; Иванова О.А. — набор материала, написание текста, подготовка иллюстраций; Цыганков А.Ю. — написание текста, подготовка иллюстраций, техническое релактирование:

Майбогин А.М. — набор материала, написание текста, подготовка иллюстраций.

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

- Benjamin S.N., Allen H.F. Classification for limbal dermoid choristomas and branchial arch anomalies. Presentation of an unusual case. Arch Ophthalmol. 1972;87:305–314. DOI: 10.1001/archopht.1972.01000020307014
- Габдрахманова А.Ф., Чернова Н.С., Жуманиязов А.Ж. Структура офтальмонкопатологии переднего отрезка и придаточного аппарата глаза у детей. Российский офтальмологический журнал. 2012;5(3):11–13. [Gabdrahmanova A.F., Chernova N.S., Zhumaniyazov A.Zh. The structure of oncological pathologies of the anterior segment and the adnexa of a child's eye. Russian ophthalmological journal = Rossijskij oftal'mologicheskij zhurnal. 2012;5(3):11–13 (In Russ.)].
- Саакян С.В. Клиническая онкология органа зрения. Эффективная фармакотерапия. 2015;30:20–27. [Saakyan S.V. Clinical oncology of visual organ. Effective pharmacotherapy = Jeffektivnaja farmakoterapija. 2015;30:20–27 (In Russ.)].
- Schulze R.R. Limbal dermoid tumor with intraocular extension. Arch Ophthalmol. 1966;75(6):803–805. DOI: 10.1001/archopht.1966.00970050805018
- Ferry A.P., Hein H.F. Epibulbar osseous choristoma within an epibulbar dermoid. *Am J Ophthalmol*. 1970;70(5):764–766. DOI: 10.1016/0002-9394(70)90498-8
- Ortiz J.M., Yanoff M. Epipalpebral conjunctival osseous choristoma. Br J Ophthalmol. 1979;63(3):173–176. DOI: 10.1136/bjo.63.3.173
- Tasse C., Böhringer S., Fischer S. Oculo-auriculo-vertebral spectrum (OAVS): clinical evaluation and severity scoring of 53 patients and proposal for a new classification. Eur J Med Genet. 2005;48:397–411. DOI: 10.1016/j.ejmg.2005.04.015
- 8. Хлебникова О.В., Дадали Е.Л., Беклемищева Н.А., Кадышев В.В. Клинико-генетические характеристики врожденных пороков развития органа зрения. *Медицинская генетика*. 2008;7(8):9–24. [Hlebnikova O.V., Dadali E.L., Beklemishcheva N.A., Kadyshev V.V. Clinical and genetic characteristics of congenital eye anomalies. Medical genetics = *Medicinskaya genetika*. 2008;7(8):9–24 (In Russ.)].
- Oakman J.H. Jr, Lambert S.R., Grossniklaus H.E. Corneal dermoid: case report and review of classification. J Pediatr Ophthalmol Strabismus. 1993;30(6):388–391.
- Tsai A.S., Lee K.Y., Al Jajeh I., Sittampalam K, Fong K.S. Epibulbar osseous choristoma: a report of two cases. *Orbit.* 2008;27(3):231–233. DOI: 10.1080/01676830701549181

- Trubnik V., Conley R., Ritterband D.C. Progressive growth in epibulbar complex choristomas: report of 2 cases and review of literature. *Cornea*. 2011;30(11):1267– 269. DOI: 10.1097/ICO.0b013e31820ca654
- Mc Alister J.C., Olver J.M., Hatter T. Severe bilateral ocular features in Goldenhar's syndrome. J Pediatr Ophthalmol Strabismus. 2001;38(1):44–46.
- Mehta B., Nayak C., Savant S., Amladi S. Goldenhar syndrome with unusual features. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2008;74(3):254–256. DOI: 10.4103/0378-6323.41374
- Киселева Л.Г., Мокеева Л.П., Тишкова Ю.С. Клинический случай синдрома Гольденхара у новорожденного. Вятский медицинский вестник. 2015;2(46):53–55. [Kiseleva L.G., Mokeeva L.P., Tishkova Yu.S. Clinical case of the Goldenhar syndrome in the newborn. Vyatka medical messenger = Vyatskij medicinskij vestnik. 2015;2(46):53–55 (In Russ.)].
- 15. Кутимова В.Г., Кутимова Е.Ю. Дермоид роговицы. Синдром Goldenhar. Клинический случай. Вестник Тамбовского университета. Серия: Естественные и технические науки. 2016;21(2):549–551. [Kutimova V.G., Kutimova E.Yu. Clinical dermoid. Goldenhar syndrome. A case report. Tambov University Reports. Series: Natural and Technical Sciences = Vestnik Tambovskogo universiteta. Seriya: Estestvennye i tekhnicheskie nauki. 2016;21(2):549–551 [In Russ.]].
- Alshaikh H., Alsaif F., Aldukhi S. Clinical and Genetic Review of Hereditary Acral Reticulate Pigmentary Disorders. *Dermatol Res Pract.* 2017;2017;3518568. DOI: 10.1155/2017/3518568
- 17. Delleman J.W., Oorthuys J.W.E. Orbital cyst in addition to congenital cerebral and focal dermal malformations: a new entity? *Clin. Genet.* 1981;19:191–198. DOI: 10.1111/j.1399-0004.1981.tb00695.x
- Жилина С.С., Сидоренко Е.Е., Бельченко В.А. Окулоцереброкутанный синдром (синдром Деллемана). Педиатрия. Журнал им. Г.Н. Сперанского. 2012;91(1):76–80. [Zhilina S.S., Sidorenko E.E., Bel'chenko V.A., Oculocerebrocutaneal syndrome (Delleman syndrome). Journal «Pediatria» named after G.N. Speransky = Pediatriya. Zhurnal im. G.N. Speranskogo. 2012;91(1):76–80 (In Russ.)].

- Мелехина М.А. Метод оптической когерентной томографии в диагностике новообразований контьюнктивы. Офтальмохирургия и терапия. 2003;3(1– 2):37–41. [Melekhina M.A. Method of optic coherent tomography in diagnostics of conjunctive newgrowths. Ophthalmosurgery and therapy = Oftal mohirurgiya i terapiya. 2003;3(1–2):37–41 (In Russ.)].
- 20. Иванова О.А., Саакян С.В. Применение оптической когерентной томографии в комплексной диагностике эпибульбарных новообразований. *Российский офтальмопогический журнал*. 2011;4(1):77–79. [Ivanova O.A., Saakyan S.V. An experience of using optical coherence tomography in the complex diagnosis of epibulbar tumors. Russian ophthalmological journal = *Rossijskij oftal'mologicheskij zhurnal*. 2011;4(1):77–79 (In Russ.)].
- Şimşek A., Bilak Ş., Balyen L., Erdoğdu İ.H. Conservative Surgical Management of a Grade III Corneal Dermoid. Cornea. 2015;34(10):1318-20. DOI: 10.1097/ ICO.0000000000000521
- Степанов В.К., Исаева О.В., Муриева И.В. Корнео-склеро-конъюнктивопластика при удалении эпибульбарных опухолей глазного яблока. Точка эрения. Восток-Запад. 2015;1:234—235. [Stepanov V.K., Isaeva O.V., Murieva I.V. Corneosclero-conjunctivoplasty in the removal of epubulbar tumors of the eyeball. Point of view. East-West = Tochka zreniya. Vostok-Zapad. 2015;1:234—235 (In Russ.)].
- 23. Кадыров Р.З. Хирургическое лечение эпибульбарных опухолей органа зрения с применением биоматериалов Аллоплант. Креативная хирургия и онкология. 2011;4:82–85. [Kadyrov R.Z. Surgical treatment of epibulbar tumours of vision organ with the use of Alloplant biomaterials. Creative surgery and oncology = Kreativnaya hirurgiya i onkologiya. 2011;4:82–85 (In Russ.)].

СВЕДЕНИЯ ОБ АВТОРАХ

ФГБУ «Московский научно-исследовательский институт глазных болезней им. Гельмгольца» Министерства здравоохранения Российской Федерации ГБОУ ВПО «Московский государственный медико-стоматологический университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации Саакян Светлана Владимировна

доктор медицинских наук, профессор, начальник отдела офтальмоонкологии и радиологии, зав. учебной частью кафедры глазных болезней ФДПО ул. Садовая-Черногрязская, 14/19, Москва, 105062, Российская Федерация ул. Делегатская, 20, стр. 1, Москва, 127473, Российская Федерация

ФГБУ «Московский научно-исследовательский институт глазных болезней им. Гельмгольца» Министерства здравоохранения Российской Федерации Тацков Роберт Александрович

врач отдела офтальмоонкологии и радиологии ул. Садовая-Черногрязская, 14/19, Москва, 105062, Российская Федерация

ФГБУ «Московский научно-исследовательский институт глазных болезней им. Гельмгольца» Министерства здравоохранения Российской Федерации Иванова Ольга Андреевна

кандидат медицинских наук, врач отдела офтальмоонкологии и радиологии ул. Садовая-Черногрязская, 14/19, Москва, 105062, Российская Федерация

ФГБУ «Московский научно-исследовательский институт глазных болезней им. Гельмгольца» Министерства здравоохранения Российской Федерации ГБОУ ВПО «Московский государственный медико-стоматологический университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации Цыганков Александр Юрьевич

кандидат медицинских наук, младший научный сотрудник отдела офтальмоонкологии и радиологии, ассистент кафедры глазных болезней ФДПО ул. Садовая-Черногрязская, 14/19, Москва, 105062, Российская Федерация ул. Делегатская, 20, стр. 1, Москва, 127473, Российская Федерация

ФГБУ «Московский научно-исследовательский институт глазных болезней им. Гельмгольца» Министерства здравоохранения Российской Федерации Майбогин Артемий Михайлович

врач отдела патологической анатомии и гистологии ул. Садовая-Черногрязская, 14/19, Москва, 105062, Российская Федерация

- 24. Vaidya S.P., Vaidya P.C. Ocular dermoid. Indian Pediatr. 2014;51:333.
- 25. Zhong J., Deng Y., Zhang P. New Grading System for Limbal Dermoid: A Retrospective Analysis of 261 Cases Over a 10-Year Period. Cornea. 2018;37(1):66–71. DOI: 10.1097/ICO.000000000001429
- Wei Q.C., Li X.H., Hao Y.R. The pathological analysis of 213 children with ocular tumor. Zhonghua Yan Ke Za Zhi. 2013;49:37–40.
- Watson S., Sarris M., Kuishek M. Limbal dermoid epithelium shares phenotypic characteristics common to both hair epidermal and limbal epithelial stem cells. Curr Eye Res. 2013;38:835–842. DOI: 10.3109/02713683.2013.780625
- del Rocio Arce Gonzalez M., Navas A., Haber A., Ramirez-Liquin T., Graue-Hernandez E.O. Ocular dermoids: 116 consecutive cases. *Eye Contact Lens*. 2013;39:188–191. DOI: 10.1097/icl.0b013e31824828ee
- Jakobiec F.A., Nguyen J., Mandell K., Fay A. Complex palpebral odontogenic choristoma: a reappraisal of the origin of teeth-bearing periocular lesions. *Am J Ophthalmol.* 2009;147:531–543. DOI: 10.1016/j.ajo.2008.09.033
- Gayre G.S., Proia A.D., Dutton J.J. Epibulbar osseous choristoma: case report and review of the literature. Ophthalmic Surg Lasers. 2002;33:410–415.
- Pirouzian A., Holz H., Merrill K., Sudesh R., Karlen K. Surgical management of pediatric limbal dermoids with sutureless amniotic membrane transplantation and augmentation. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus*.2012;49:114–119. DOI: 10.3928/01913913-20110823-01
- Watts P., Michaeli-Cohen A., Abdolell M., Rootman D. Outcome of lamellar keratoplasty for limbal dermoids in children. J AAPOS. 2002;6:209–215. DOI: 10.1067/mpa.2002.124651

ABOUT THE AUTHORS

Moscow Helmholtz Research Institute of Eye Diseases Moscow State Medical Stomatological University Saakyan Svetlana V.

 $\label{eq:m.d.p.p.p.d.p.p.p.d.p.p.p.d.p.p.d.p.p.d.p.p.d.p.p.d.p.p.d.p.p.d.p.p.d.p.p.d.p.$

Sadovaya-Chernogryazskaya str., 14/19, Moscow, 105062, Russia Delegatskaya str., 20/1, Moscow, 127473, Russia

Moscow Helmholtz Research Institute of Eye Diseases Tatskov Robert A.

ohthalmologist of ocular oncology and radiology department Sadovaya-Chernogryazskaya str., 14/19, Moscow, 105062, Russia

Moscow Helmholtz Research Institute of Eye Diseases Ivanova Ol`ga A.

PhD., ohthalmologist of ocular oncology and radiology department Sadovaya-Chernogryazskaya str., 14/19, Moscow, 105062, Russia

 ${\it Moscow~Helmholtz~Research~Institute~of~Eye~Diseases,~Moscow~State~Medical~Stomatological~University}$

Tsygankov Alexander I.

PhD, researcher at ocular oncology and radiology department, assistant at ophthalmology faculty

Sadovaya-Chernogryazskaya str., 14/19, Moscow, 105062, Russia Delegatskaya str., 20/1, Moscow, 127473, Russia

Moscow Helmholtz Research Institute of Eye Diseases Maybogin Artemii Mikhailovich ohthalmologist of pathology and histology department Sadovaya-Chernogryazskaya str., 14/19, Moscow, 105062, Russia