

临床论著

国人脊柱原发性肿瘤流行病学特征的 Meta 分析

鲁亚杰¹, 李明辉¹, 龙作尧¹, 张浩强², 陈国景¹, 刘冬¹, 王臻¹(1 中国人民解放军空军军医大学西京医院骨科 710032 陕西省西安市; 2 中国人民解放军兰州总医院
全军骨科中心关节外科 730050 甘肃省兰州市)

【摘要】目的:系统评价中国人脊柱原发性肿瘤的流行病学特征。**方法:**计算机检索 Pubmed、Medline、Ovid、ScienceDirect、Embase、Web of Science、万方、中国知网(China national knowledge infrastructure, CNKI)、维普(vip citation databases, VIP)、中国生物医学文献(China biology medicine disc, CBM)数据库,检索时间为 1980 年 1 月~2017 年 6 月,收集有关中国地区脊柱原发性肿瘤流行病学特征及临床病例分析的研究,对文献所报道的各種肿瘤占比、男女比例、年龄分布、解剖学部位分布等数据进行提取,按照澳大利亚循证护理中心推荐的标准(JBI-criteria)对文献质量进行评价,采用 RevMan 5.3 软件对数据进行 Meta 分析。**结果:**纳入符合标准的中英文文献 23 篇,文献质量评分均在 7 分以上。对文献中报道的 3462 例脊柱原发性肿瘤进行 Meta 合并分析,结果显示:(1)在脊柱原发性肿瘤中,良性肿瘤所占比例为 61%(95%CI:56%~66%),恶性肿瘤所占比例为 39%(95%CI:34%~44%)。(2)良、恶性肿瘤分类中,男性所占比例均高于女性,但骨巨细胞瘤中女性所占比例为 52%(95%CI:47%~58%),男性为 48%(95%CI:42%~53%)。(3)良性肿瘤 21~40 岁患者占 40%(95%CI:35%~45%),恶性肿瘤 41~60 岁患者占 44%(95%CI:40%~48%),超过 70% 的脊柱原发性肿瘤患者年龄在 21~60 岁。(4)颈、胸、腰、骶椎肿瘤分别占 25%、26%、22%、27%,良性肿瘤好发于颈椎,恶性肿瘤以骶椎多见。敏感性分析结果显示,Meta 分析结果可靠,除解剖学分布外漏斗图基本对称,不存在较大发表偏倚。**结论:**中国人脊柱原发性肿瘤中,良性肿瘤比例高于恶性,男性比例高于女性;良性肿瘤好发于 21~40 岁,恶性肿瘤好发于 41~60 岁;脊柱原发性肿瘤在颈、胸、腰、骶节段的分布大致相当,良性肿瘤颈椎居多,恶性肿瘤骶椎居多。

【关键词】原发性肿瘤;脊柱;流行病学;Meta 分析

doi: 10.3969/j.issn.1004-406X.2018.01.10

中图分类号:R738.1 文献标识码:A 文章编号:1004-406X(2018)-01-0062-11

Epidemiological characteristics of primary spinal tumors in China: a Meta-analysis/LU Yajie, LI Minghui, LONG Zuoyao, et al/Chinese Journal of Spine and Spinal Cord, 2018, 28(1): 62-72

【Abstract】Objectives: To systematically evaluate the epidemiological and demographic characteristics of primary spinal tumors in China. **Methods:** Pubmed, Medline, Ovid, ScienceDirect, Embase, Web of Science, CNKI, VIP, CBM and Wan Fang databases were searched to retrieve studies published from January 1980 to June 2017, reporting the epidemiological characteristics of primary spinal tumors in China. Data were extracted from the literatures, including the proportion of tumors, the ratio of male to female, age distribution and anatomical location distribution. The quality of literature was evaluated according to JBI-criteria. A Meta-analysis was performed by using RevMan 5.3 software. **Results:** 23 articles consistent with the criteria were included in the study. The quality score of the articles were all above 7 points. Meta-analysis of 3462 patients with primary spinal tumors revealed: (1)in primary spinal tumors, benign tumors accounted for 61%(95% CI: 56%-66%), while malignant tumors for 39%(95%CI: 34%-44%); (2)in benign or malignant tumors, the proportion of males was higher than that of females, but for giant cell tumor, females accounting for about 52%(95%CI: 47%-58%) while males for 48%(95%CI: 42%-53%); (3)patients between 21 and 40 years old accounted for 40% of all benign tumors(95%CI: 35%-45%), patients between 41 and 60 years old accounted for 44% of all malignant tumors(95%CI: 40%-48%), more than 70% of patients with primary spinal tumors

第一作者简介:男(1992-),在读博士研究生,研究方向:骨肿瘤

电话:(029)84775281 E-mail:980563799@qq.com

通讯作者:王臻 E-mail:wangzhen@fmmu.edu.cn

were between 21 to 60 years old; (4) the tumors in the cervical, thoracic, lumbar and sacral regions accounted for 25%, 26%, 22% and 27% respectively, benign tumors were common in cervical vertebra while malignant tumors in sacrum. The results of sensitivity analysis showed that the outcomes of meta-analysis were credible. The funnel plot was basically symmetrical except for the distribution of anatomical parts, and there was no significant publication bias. **Conclusions:** In Chinese, the proportion of benign tumors is higher than that of malignant, and the proportion of male is higher than that of female. Benign tumors often occur at the age of 21–40 and malignant tumors occur at the age of 41–60. The distribution of the primary spinal tumors in the cervical, thoracic, lumbar and sacral vertebra is roughly equal. Benign tumors often occur in cervical vertebra while malignant tumors in sacrum.

【Key words】 Primary tumor; Spine; Epidemiology; Meta-analysis

【Author's address】 Department of Orthopaedics, Xijing Hospital, The Air Force Military Medical University, Xi'an, 710032, China

脊柱原发肿瘤在人类肿瘤中相对少见,其发生率约为 0.4%^[1]。由于单个中心往往很难获得较多数目的病例,因此,目前还没有关于脊柱原发肿瘤发病率及流行病学特征的精确报道。国内外有关骨及软组织肿瘤的较大样本统计大多是通过疾病登记中心完成的,如日本骨肿瘤登记中心、美国 Mayo clinic、中国骨肿瘤登记中心^[2],但其研究均未将脊柱原发肿瘤作为主要关注点。国内外有很多文章对单一瘤种的流行病学特点进行报道,但关于脊柱原发肿瘤的性别倾向、各瘤种所占比例、节段分布特征、年龄分布特征等问题尚未有统一认知。本研究收集有关国人脊柱原发肿瘤的研究报道,通过 Meta 合并分析,旨在提供高级别临床流行病学研究证据,对国人脊柱原发肿瘤发病的性别倾向、瘤种占比、年龄分布及解剖学分布等特征进行系统阐述。

1 资料与方法

1.1 文献检索

检索 1980 年 1 月~2017 年 6 月发表的有关中国地区脊柱原发肿瘤临床分析及流行病学的研究报道,包括期刊论文、会议论文及学位论文。中文文献检索:中国知网(China national knowledge infrastructure, CNKI)、维普数据库(vip citation databases, VIP)、中国生物医学文献数据库(China biology medicine disc, CBM)、万方数据库,检索关键词:脊柱、肿瘤、临床分析、流行病学;外文文献检索数据库 Pubmed、Medline、Ovid、ScienceDirect、Embase、Web of Science,检索词:spine、tumor、epidemiologic、clinical feature。对纳入文献的参考文献进行扩展检索,以减少漏检。

1.2 文献纳入和排除标准

纳入标准:(1)研究类型为回顾性研究、横断面研究或流行病学调查;(2)研究无差别纳入脊柱原发肿瘤患者,肿瘤类型包括原发骨肿瘤、神经鞘瘤、神经纤维瘤等软组织肿瘤;(3)肿瘤诊断结果通过病理学证实;(4)研究详细报道了病例数及人口学特征,或该部分内容可联系文章作者获得。排除标准:(1)研究关注点为脊髓肿瘤;(2)研究所需数据不完整且无法获取;(3)文章质量评分低于 7 分者;(4)同一病例来源文献选取文章质量评分高者;(5)重复发表及重复收录文献。

1.3 文献筛选及文献质量学评价

两名研究者严格按照纳入、排除标准筛选文献,意见不统一时加入第三名研究者共同商议进行决断。按照澳大利亚循证护理中心(Joanna Briggs institute, JBI)推荐的观察性研究质量评价标准(JBI-criteria)对文献质量进行评价^[3],该标准共 10 个条目,每个条目按照“不符合要求”、“提到但未详述”、“详细、全面、正确描述”分别赋予 0、1、2 分。以得分总和作为文章质量评分,分数越高表示文章质量越高。具体条目:(1)研究目的是否明确,选题依据是否充分;(2)研究人群选择是否随机,是否分层抽样;(3)是否清晰地描述了样本的纳入和排除标准;(4)是否清晰地描述了样本的特征;(5)资料收集的工具是否具有信度和效度;(6)核实资料真实性的方法是否合适;(7)是否考虑到伦理的问题;(8)统计方法是否正确;(9)对研究结果的陈述是否恰当、准确;(10)是否对研究价值进行了清晰的阐述。

1.4 资料提取方法

由两名研究者对纳入文献的数据进行提取,提取内容包括:研究时间、地区、各瘤种患者数目、男女占比、平均年龄及各年龄段患者数目、肿瘤在

初步检索文献 9694 篇, 经过初筛及全文筛选, 最终纳入符合标准文献 23 篇(图 1), 其中英文期刊论文 3 篇, 中文期刊论文 17 篇, 学位论文 3 篇。23 项研究包含脊柱原发肿瘤 3462 例, 大部

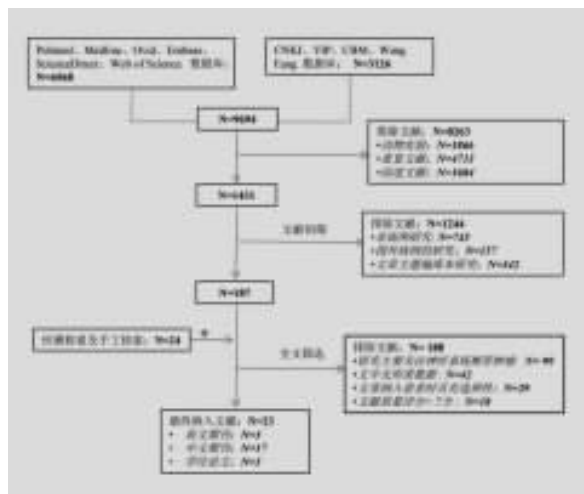


Figure 1 Flowchart of Literature review process

13 项研究^[4-7,11-14,16,20,22,23,26]分别对良性肿瘤及恶性肿瘤患者的性别比例特征进行了描述。分别汇总研究中良性和恶性肿瘤男女所占比例,采用随机效应模型对数据进行合并分析。结果显示:脊柱原发肿瘤的发病具有一定的男性倾向性,良性肿瘤男性比例为 54%(95%CI:50%~58%),恶性肿瘤男性比例为 60%(95%CI:54%~65%),均高

于女性患者所占比例。分别对良性肿瘤和恶性肿瘤中最为常见的瘤种进行进一步分析显示, 血管瘤、神经鞘瘤、浆细胞瘤/骨髓瘤、软组织瘤其男性所占比例均大于女性, 而骨巨细胞瘤女性所占比例大于男性。良恶性肿瘤性别分布特征见图 5 及表 2。

2.4 年龄分布特征

12 项^[4-7,11-14,16,20,23,26]详细介绍了良、恶性肿瘤年龄分布特征。将患病年龄按照 20 年间隔分为四组, 即 20 岁以下(含 20 岁)、21~40 岁、41~60 岁、60 岁以上。统计各研究中位于该年龄段患者数目占总数的比例, 然后以随机效应模型对统计结果

表 1 纳入文献基本特征

Table 1 Main characteristics of studies included in the meta-analysis

作者 First Author	发表时间 Date- Publication	地区 District	研究时间段 Year	人群 Population	样本量 Cases	平均年龄(范围) Average age(range)	文章来源 Article type	质量评分 Quality score
Abdulraheem Saad Abdulkhaleg Al-qareai ^[4]	2015	湖北 Hubei	2004~2013	不限 All	123	42.8(12~69)	学位论文 Dissertation	13
常楚 ^[5] Chang C	1997	辽宁 Liaoning	1980~1996	不限 All	75	未报道 Unknown	期刊论文 Journal Article	10
Dang L ^[6]	2015	北京 Beijing	2004~2012	不限 All	438	未报道 Unknown	期刊论文 Journal Article	12
宫晨 ^[7] Gong C	2012	湖北 Hubei	2009~2010	不限 All	95	43.34(7~74)	期刊论文 Journal Article	12
郭世绂 ^[8] Guo SB	1981	天津 Tianjin	1958~1979	不限 All	66	未报道(2~69) Unknown(2~69)	期刊论文 Journal Article	10
郭卫 ^[9] Guo W	2006	北京 Beijing	1998~2005	不限 All	135	未报道 Unknown	期刊论文 Journal Article	8
胡有谷 ^[10] Hu YG	1990	山东 Shandong	1972~1988	不限 All	37	38.60(13~70)	期刊论文 Journal Article	9
胡云洲 ^[11] Hu YZ	1984	四川 Sichuan	1961~1981	不限 All	43	32.90(3~62)	期刊论文 Journal Article	11
梁堂钊 ^[12] Liang TZ	2009	广东 Guangdong	1996~2009	不限 All	76	未报道 Unknown	学位论文 Dissertation	13
刘俊宾 ^[13] Liu JB	2005	山东 Shandong	1990~2004	不限 All	68	42.00(14~70)	期刊论文 Journal Article	9
刘沛 ^[14] Liu P	1992	江苏 Jiangsu	1962~1990	不限 All	45	未报道 Unknown	期刊论文 Journal Article	8
吕智 ^[15] Lv Z	1996	山西 Shanxi	1986~1996	不限 All	49	43.00(14~58)	期刊论文 Journal Article	9
孟令权 ^[16] Meng LQ	2003	天津 Tianjin	1996~2002	不限 All	27	54.51(17~82)	学位论文 Dissertation	10
彭新生 ^[17] Peng XS	2005	广东 Guangdong	1991~2003	儿童 Children	41	9.60(3~16)	期刊论文 Journal Article	9
Song D ^[18]	2016	上海 Shanghai	2000~2013	儿童 Children	190	13.70(1~18)	期刊论文 Journal Article	14
王文华 ^[19] Wang WH	1983	上海 Shanghai	1950~1982	不限 All	36	未报道(11~85) Unknown(11~85)	期刊论文 Journal Article	8
向国元 ^[20] Xiang GY2	1992	重庆 Chongqing	1970~1991	不限 All	30	未报道(5~61) Unknown(5~61)	期刊论文 Journal Article	10
肖建如 ^[21] Xiao JR	2004	上海 Shanghai	1987~2002	儿童 Children	43	11.80(3~16)	期刊论文 Journal Article	11
杨昊飞 ^[22] Yang HF	2015	湖北 Wuhan	2003~2013	儿童 Children	35	3.60(3~18)	期刊论文 Journal Article	13
张小军 ^[23] Zhang XJ	2012	陕西 Shanxi	1990~2007	不限 All	384	未报道 Unknown	期刊论文 Journal Article	11
张之虎 ^[24] Zhang ZH	1986	北京 Beijing	1960~1984	不限 All	47	33.90(12~65)	期刊论文 Journal Article	11
郑伟 ^[25] Zheng W	2011	上海 Shanghai	2000~2007	不限 All	170	43.60(10~81)	期刊论文 Journal Article	12
Zhou Z ^[26]	2017	上海 Shanghai	1995~2015	不限 All	1209	39.30(8~81)	期刊论文 Journal Article	15

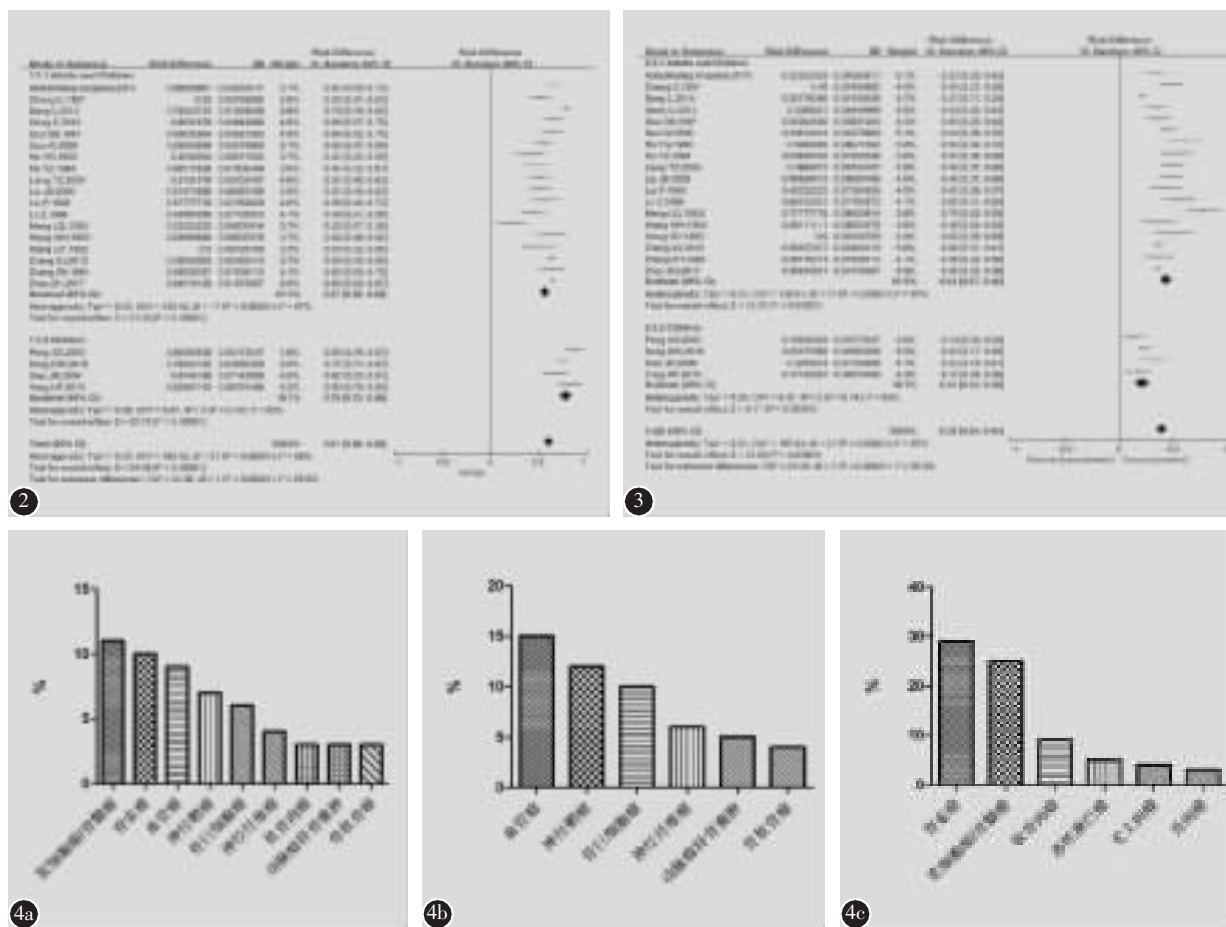


图2 良性肿瘤比例 Meta 分析森林图 图3 恶性肿瘤比例 Meta 分析森林图 图4 a 良性+恶性脊柱原发肿瘤中前9位 b 良性脊柱原发肿瘤中前6位 c 恶性脊柱原发肿瘤中前6位

Figure 2 The forest plot—percentage of benign tumors **Figure 3** The forest plot—percentage of malignant tumors **Figure 4 a** The rank of all primary spinal tumors **b** The rank of primary benign tumors of the spine **c** The rank of primary malignant tumors of the spine

进行合并分析。结果如表3及图6所示,良性肿瘤以21~40岁年龄段最多,约占40%(95%CI:35%~45%);恶性肿瘤以41~60岁年龄段好发,约占44%(95%CI:40%~48%)。总体来看,原发肿瘤的好发人群主要集中在21~60岁,占发病总人数的70%以上。

2.5 解剖学部位分布特征

纳入研究中8项研究^[5,6,12-14,19,23,26]对良恶性肿瘤的解剖学部位分布特征进行了具体描述。研究共涉及病椎2397个,其中良性病灶1580个,恶性病灶817个。按照脊柱节段分为颈椎、胸椎、腰椎、骶椎。选用随机效应模型对良恶性肿瘤在脊柱节段分布情况进行Meta合并分析,结果见图7、8。良性肿瘤最常见于颈椎($P=28\%$, 95%CI:12%~45%),骶椎分布最少($P=17\%$, 95%CI:10%~

23%),这与恶性肿瘤分布特征呈现相反的趋势,恶性肿瘤最多见于骶椎($P=39\%$, 95%CI:29%~48%),颈椎和腰椎较少,分别占18%(95%CI:9%~27%)和17%(95%CI:12%~22%)。整体而言,脊柱原发肿瘤的解剖学分布是相对均匀的,颈、胸、腰、骶椎分别占25%、26%、22%、27%。

2.6 敏感性分析

对以上Meta分析结果逐一剔除样本量较小的研究,结果显示Meta分析单个率的合成结果基本与目前一致。3项研究^[9,13,25]纳入患者均为接受手术治疗患者,将该3项研究剔除后进行敏感性分析,结果显示Meta分析合并效应值无明显变化,说明本Meta分析研究结论较为稳定,单个研究引起的结果偏倚较小。

2.7 发表偏倚分析

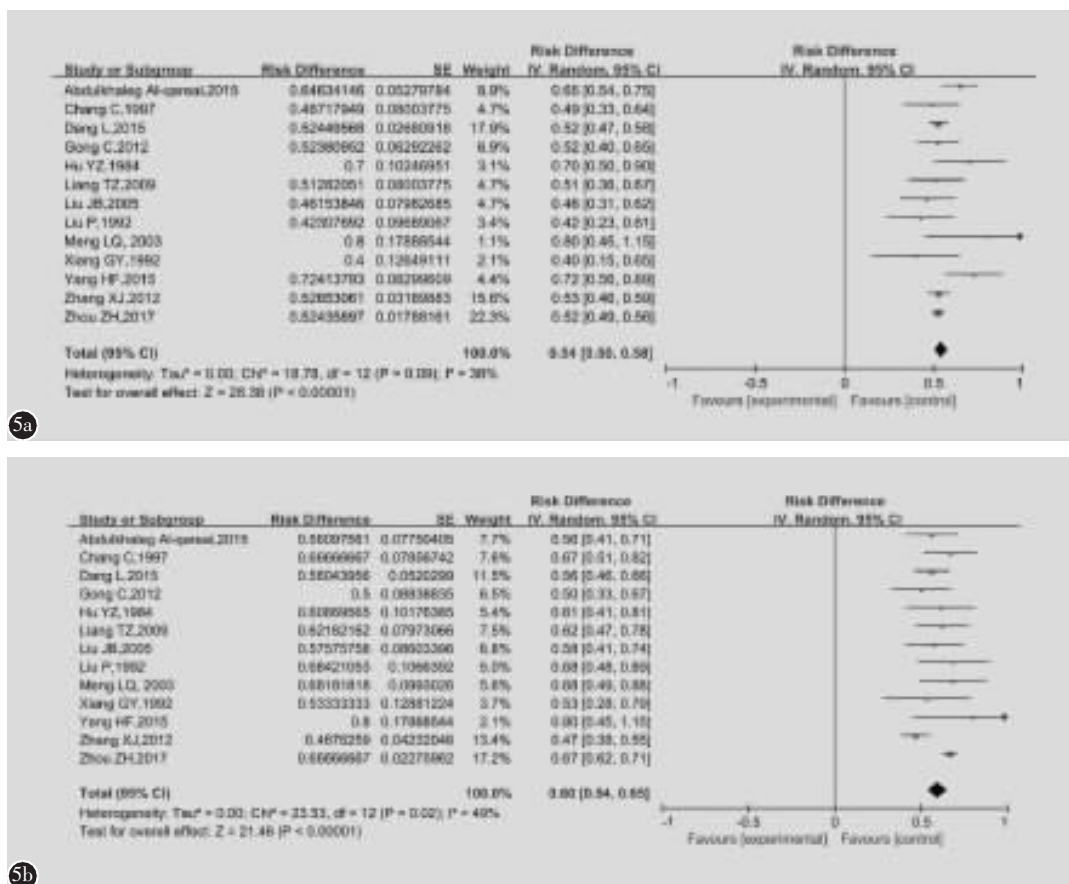


图 5 a 脊柱原发良性肿瘤中男性占比 Meta 分析森林图 b 脊柱原发恶性肿瘤中男性占比 Meta 分析森林图

Figure 5 a The forest plot—the proportion of males in the primary benign tumors of the spine b The forest plot—the proportion of males in the malignant tumors of the spine

表 2 脊柱原发肿瘤性别分布特征

Table 2 Characteristics of sex distribution in primary spinal tumors

肿瘤名称 Tumors	男性比例 (%) (95%CI) The proportion of males(%) (95%CI)	女性比例 (%) (95%CI) The proportion of female(%) (95%CI)
良性 Benign tumors	54% (50%, 58%)	45% (41%, 49%)
血管瘤 Hemangioma	52% (47%, 56%)	48% (44%, 54%)
神经鞘瘤 Neurilemmoma	53% (48%, 58%)	48% (44%, 54%)
骨巨细胞瘤 Giant cell tumor of bone	48% (42%, 53%)	52% (47%, 58%)
恶性 Malignant tumors	60% (54%, 65%)	41% (36%, 46%)
脊索瘤 Chordoma	60% (47%, 72%)	39% (27%, 50%)
浆细胞瘤/骨髓瘤 Plasmacytoma/myeloma	56% (45%, 70%)	44% (32%, 61%)
软骨肉瘤 Chondrosarcoma	51% (27%, 76%)	48% (24%, 62%)
良性+恶性 All tumors	57% (53%, 60%)	40% (36%, 44%)

表 3 脊柱原发肿瘤患者年龄分布特征

Table 3 Characteristics of age distribution in patients with primary spinal tumors

	良性肿瘤 Benign tumors (95%CI)	恶性肿瘤 Malignant tumors (95%CI)	总体 Total (95%CI)
≤20 岁 ≤20 years	21% (15%, 27%)	6% (5%, 8%)	16% (12%, 19%)
21~40 岁 21~40 years	40% (35%, 45%)	28% (22%, 33%)	35% (31%, 39%)
41~60 岁 41~60 years	29% (21%, 37%)	44% (40%, 48%)	36% (31%, 42%)
>60 岁 >60 years	10% (1%, 19%)	16% (10%, 22%)	10% (6%, 13%)

采用漏斗图方法对脊柱原发肿瘤良、恶性比例、性别倾向、年龄分布、解剖学部位分布进行发表偏倚分析(图 9)。结果显示解剖学部位分布的 Meta 分析漏斗图对称性较差,提示存在发表性偏倚,其他 Meta 合并研究漏斗图基本对称,发表偏倚较小。

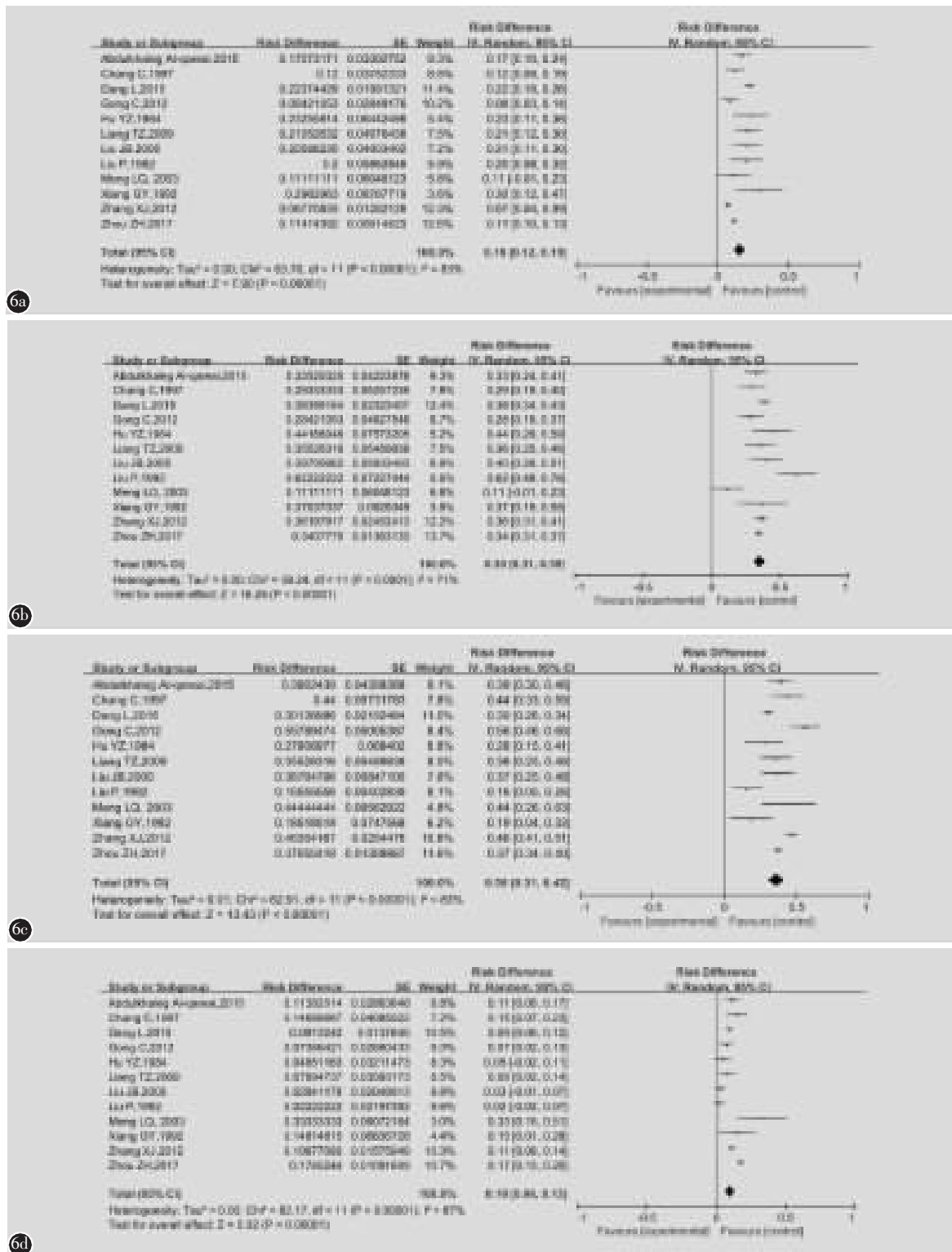


图 6 a 脊柱原发肿瘤中年龄 ≤ 20 岁患者所占比例 Meta 分析森林图 b 脊柱原发肿瘤中年龄 21~40 岁患者所占比例 Meta 分析森林图 c 脊柱原发肿瘤中年龄 41~60 岁患者所占比例 Meta 分析森林图 d 脊柱原发肿瘤中年龄 ≥ 61 岁患者所占比例 Meta 分析森林图

Figure 6 a The forest plot—the proportion of patients younger than 20 years old in the primary spinal tumors b The forest plot—the proportion of patients aged between 20 and 40 years old in the primary spinal tumors c The forest plot—the proportion of patients aged between 41 and 60 years old in the primary spinal tumors d The forest plot—the proportion of patients older than 61 years in the primary spinal tumors

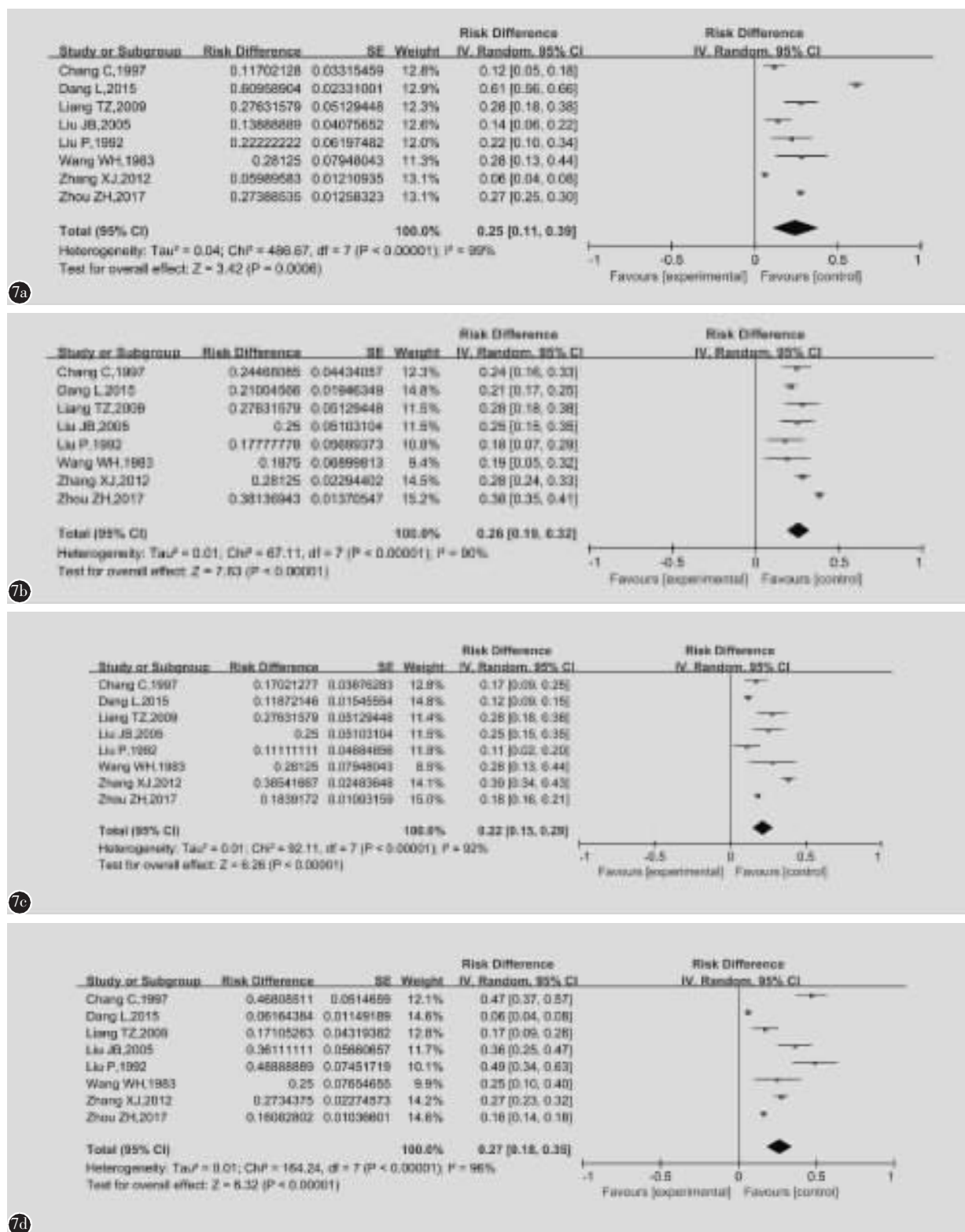


图 7 a 颈椎原发肿瘤所占比例 Meta 分析森林图 b 胸椎原发肿瘤所占比例 Meta 分析森林图 c 腰椎原发肿瘤所占比例 Meta 分析森林图 d 骶椎原发肿瘤所占比例 Meta 分析森林图

Figure 7 a The forest plot—the proportion of primary tumors of the cervical spine b The forest plot—the proportion of primary tumors of the thoracic spine c The forest plot—the proportion of primary tumors of the lumbar spine d The forest plot—the proportion of primary tumors of the sacrum

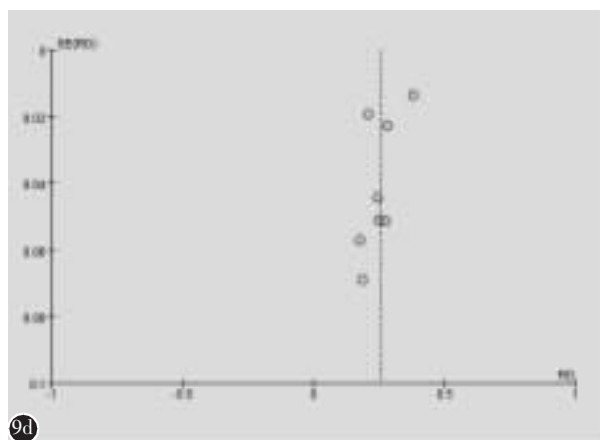
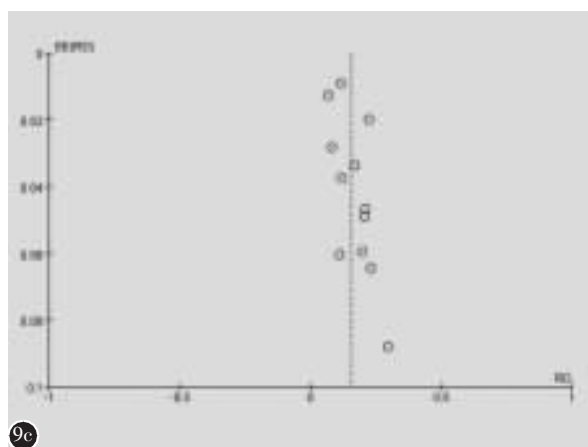
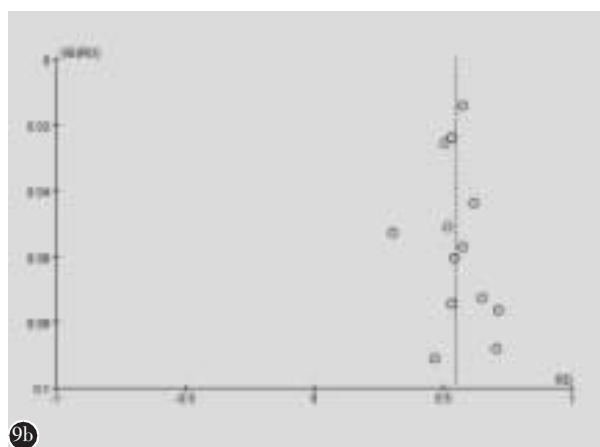
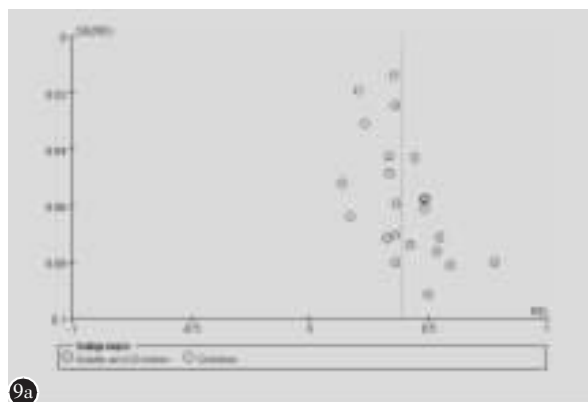
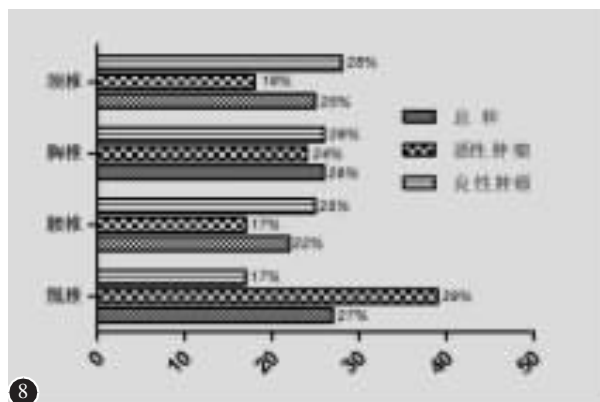


图 8 脊柱原发肿瘤解剖学部位分布特征 图 9 Meta 分析漏斗图 a 良恶性比例 b 性别分布 c 年龄分布 d 解剖学部位分布

Figure 8 Characteristics of anatomic distribution in primary spinal tumors Figure 9 a Funnel plot - proportion of benign or malignant tumors b Funnel plot - sex distribution c Funnel plot - age distribution d Funnel plot - anatomic distribution

3 讨论

脊柱肿瘤相对其他器官肿瘤较为少见,其原发骨肿瘤发病率约为(2.5~8.5)/10万^[27]。因此只有少数几项研究^[29,30,36]收集到大量病例对脊柱原发肿瘤进行流行病学研究,而且类似的研究主要集中在美国和欧洲。由于肿瘤的发病及分布特征具有明显的种族和地区差异,因此对中国地区脊柱原发肿瘤的流行病学特征进行系统研究具有重要的价值。冯乃实等^[28]在 1997 年对 4327 例骨肿瘤及瘤样病变进行流行病学研究,但主要关注点并非脊柱原发肿瘤;张小军等^[23]对陕西地区 640 例

脊柱肿瘤进行统计,其中原发肿瘤 384 例;Zhou 等^[26]对上海地区 1209 例脊柱原发肿瘤进行统计分析,发现良性肿瘤 780 例和恶性肿瘤 429 例,研究结果显示中国脊柱原发肿瘤的流行病学特征与国外存在一定差异。以上研究具有较大的样本量,但由于受到地域和研究条件的限制,均不能较好地代表中国脊柱原发肿瘤的流行病学特征。本研究通过 Meta 分析的方式对 37 年间发表的相关数据进行系统分析,包含患者 3462 例,地区涵盖中国 12 个省级行政区,时间范围超过 60 年。因此在一定程度上能够比较客观地代表中国脊柱原发肿

瘤的发病情况。

在本研究中,良性肿瘤及恶性肿瘤分别占脊柱原发肿瘤的 61%和 39%,这与国外的一些报道存在较大差异。Kelly^[29]报道了 127 例脊柱原发骨肿瘤,其中良性肿瘤占 22.8%;美国 Mayo Clinic 医疗中心^[30]报道的 863 例脊柱原发肿瘤中,良性肿瘤占 31.7%。而国内的几项较大样本研究均支持国人脊柱原发良性肿瘤发病率较恶性肿瘤高的结论^[22,31],这种国内外之间良、恶性肿瘤比例的差异可能与肿瘤在人种间的异质性有关。本研究显示,在儿童群体中,脊柱良性肿瘤比例高达 79%,这和一些儿童阶段好发的肿瘤有关,如朗格汉斯组织细胞增殖症等。性别分布方面,良、恶性肿瘤及血管瘤、神经鞘瘤、脊索瘤、软骨肉瘤、骨髓瘤患者中男性占比均高于女性占比,但在骨巨细胞瘤中,女性所占比例较高($P=52\%$, 95%CI: 47%~58%),这与国外的一些报道^[32]相似。最近的一些研究也显示骨巨细胞瘤的复发与妊娠存在较为紧密的关系^[31,32],提示骨巨细胞瘤的发生、发展可能与某些女性激素存在关联。

在良性肿瘤中,本研究显示发病率前三位依次为血管瘤、神经鞘瘤、骨巨细胞瘤,分别占 15%、12%、10%。由于受到病例数目的限制,国内外此类报道有很大差异。部分原因是因为在国外的研究报道中,往往未将神经源性肿瘤纳入分析。但总体而言,各研究报道中,这三类肿瘤均占较高比例^[6,26,29,33]。张小军等^[23]报道良性肿瘤中神经鞘瘤、骨巨细胞瘤、神经纤维瘤居前三位,Dang 等^[6]报道良性肿瘤前三位为骨巨细胞瘤、神经鞘瘤、嗜酸性肉芽肿。在本研究纳入的儿童脊柱原发肿瘤中,多为良性肿瘤及瘤样病变,朗格汉斯细胞组织增殖症、嗜酸性肉芽肿、骨母细胞瘤较为常见。恶性肿瘤中,脊索瘤、浆细胞瘤/骨髓瘤、软骨肉瘤最为常见,分别占总体的 29%、25%、9%。该数据与多数国外研究机构报道结果相似,Kelly^[29]报道最常见肿瘤为骨髓瘤,Dahlin^[34]的数据未将血液系统肿瘤纳入统计,其报道为软骨肉瘤、骨肉瘤、脊索瘤较常见,分别占 18.5%、14.8%、11.9%。

国人良性肿瘤好发年龄段为 21~40 岁,恶性肿瘤好发年龄段为 41~60 岁,均占良恶性肿瘤的 40%以上。究其原因,良性肿瘤中发病率较高的骨巨细胞瘤及神经源性肿瘤最多见于中青年发病而恶性肿瘤中的软骨肉瘤、脊索瘤等较多见于中老

年发病。总体而言,超过 70%的脊柱原发肿瘤患者年龄在 21~60 岁。就脊柱原发肿瘤的病灶分布部位而言,良性肿瘤好发于颈椎,骶椎少见。恶性肿瘤解剖学部位分布的特征与之相反,以骶椎多见而且脊索瘤为最多的肿瘤。Zhou 等^[26]统计的 119 例脊索瘤中有 67%分布于骶椎。整体来看,脊柱原发肿瘤的解剖学部位分布并未呈现出很大差异。本研究显示,颈、胸、腰、骶椎肿瘤分别占脊柱原发肿瘤的 25%、26%、22%、27%。而国外有较多报道显示脊柱肿瘤在部位分布上有很大差别,Munoz-Bendix 等^[35]统计胸椎为脊柱原发肿瘤好发部位,约占全部脊柱肿瘤的 69.6%,Wilatratsami 等^[36]报道为骶椎好发,占脊柱肿瘤的 42%。Kelly^[29]报道为胸椎好发,占脊柱肿瘤的 37%。关于这种国内外差异产生的因素还需进一步临床及基础研究探究。

在临床病例短缺、多中心合作研究难以开展的情况下,本研究以 Meta 分析的方式对 3462 例中国脊柱原发肿瘤患者进行了流行病学分析,能够较客观真实地反映中国脊柱原发肿瘤的流行病学特征,为临床诊疗及公共卫生管理提供了重要的流行病学信息。然而,本研究也存在一定的局限性,首先,各研究之间存在一定的异质性,所处的年代不同导致的诊断差异也可能给结果的一致性带来干扰。其次,现有研究所报道的病例大多数为住院就诊病患,一些良性肿瘤患者采用门诊观察随访的方式而未予报道,对研究结果有一定的影响。

4 参考文献

1. 肖建如. 脊柱肿瘤外科学[M]. 上海: 上海科学技术出版社, 2004. 1-3.
2. 邱贵兴, 戴尅戎. 中华骨科学. 骨肿瘤卷[M]. 北京: 人民卫生出版社, 2010. 3-5.
3. 罗杰, 冷卫东. 系统评价/Meta 分析理论与实践[M]. 北京: 军事医学科学出版社, 2013. 41-44.
4. Abdulraheem Saad Abdulkhaleg Al-qareai. 209 例脊柱肿瘤外科疗效评估与生存分析[D]. 武汉: 华中科技大学, 2015.
5. 常楚, 王星铎, 朱悦. 脊椎肿瘤 105 例临床分析[J]. 中国医科大学学报, 1997, 26(4): 86-87.
6. Dang L, Liu X, Dang G, et al. Primary tumors of the spine: a review of clinical features in 438 patients[J]. J Neurooncol, 2015, 121(3): 513-520.
7. 宫晨, 姚斌, 李觅, 等. 95 例原发性脊柱肿瘤的流行病学及临床病理分析[J]. 中华全科医学, 2012, 10(10): 1503-1504.

8. 郭世绂, 张义修, 刘松年, 等. 脊柱肿瘤及肿瘤样变[J]. 天津医药肿瘤学附刊, 1981, 8(2): 88-90.
9. 郭卫, 唐顺, 杨毅, 等. 脊柱原发性肿瘤的手术治疗策略[J]. 中华骨科杂志, 2006, 26(12): 793-797.
10. 胡有谷, 周秉文, 赵振久, 等. 脊柱肿瘤 80 例临床分析[J]. 青岛医学院学报, 1990, 28(7): 392-394.
11. 胡云洲, 沈怀信, 饶书城, 等. 原发性脊柱肿瘤 43 例临床分析[J]. 肿瘤临床, 1984, 11(1): 37-40.
12. 梁堂钊. 180 例脊柱肿瘤外科治疗的疗效评估和生存预后分析[D]. 广州: 中山大学, 2009.
13. 刘俊宾, 聂志奎, 夏仁云. 113 例脊柱肿瘤的手术治疗[J]. 西部医学, 2005, 17(6): 559-560.
14. 刘沛, 陶松年, 丁训诏. 脊椎肿瘤的诊治和预防(附 62 例分析)[J]. 中国脊柱脊髓杂志, 1993, 3(1): 19-20.
15. 吕智, 刘卓. 脊柱肿瘤及瘤样病变(附 70 例临床分析)[J]. 山西医药杂志, 1996, 25(3): 171-173.
16. 孟令权. 脊柱肿瘤的临床研究[D]. 天津: 天津医科大学, 2003.
17. 彭新生, 李佛保, 廖威明, 等. 儿童脊柱肿瘤[J]. 中华小儿外科杂志, 2005, 26(12): 642-645.
18. Song D, Meng T, Lin Z, et al. Clinical features and prognostic factors of pediatric spine tumors[J]. Spine, 2016, 41(12): 1006-1012.
19. 王文华, 张光健, 刘成安. 脊柱肿瘤 36 例临床分析[J]. 肿瘤, 1983, 3(4): 155-157.
20. 向国元, 谭富生, 叶源深. 49 例脊柱肿瘤的临床分析[J]. 肿瘤防治, 1992, 5(2): 37-39.
21. 肖建如, 魏海峰, 陈华江, 等. 儿童及青少年脊柱肿瘤[J]. 中华骨科杂志, 2004, 24(7): 395-398.
22. 杨昊飞, 林松, 陈松峰, 等. 儿童及青少年脊柱肿瘤临床特点观察[J]. 中国骨与关节杂志, 2015, 4(10): 742-747.
23. 张小军, 王臻, 郭征, 等. 640 例脊柱肿瘤及瘤样病变的临床流行病学分析[J]. 临床肿瘤学杂志, 2012, 17(6): 543-548.
24. 张之虎. 脊柱肿瘤 70 例分析[J]. 中华外科杂志, 1986, 24(3): 145-148.
25. 郑伟, 吴娟, 杨立利, 等. 脊柱肿瘤患者流行病学及术后生存状况分析[J]. 中国矫形外科杂志, 2011, 19(19): 1649-1653.
26. Zhou Z, Wang X, Wu Z, et al. Epidemiological characteristics of primary spinal osseous tumors in Eastern China [J]. World J Surg Oncol, 2017, 15(1): 73-81.
27. Dregghorn CR, Newman RJ, Hardy GJ, et al. Primary tumors of the axial skeleton[J]. Spine, 1990, 15(2): 137-140.
28. 冯乃实, 李瑞宗. 骨与关节肿瘤及瘤样病变 4327 例统计分析[J]. 中华骨科杂志, 1997, 10(12): 760-765.
29. Kelley SP. Primary bone tumours of the spine: a 42-year survey from the Leeds Regional Bone Tumour Registry [J]. Eur Spine J, 2007, 16(3): 405-409.
30. Devaney K. Dahlin's bone tumors: general aspects and data on 11087 cases[J]. Am J Surg Pathol, 1996, 20(10): 1298-1304.
31. Meng T, Yin H, Li Z, et al. Therapeutic strategy and outcome of spine tumors in pregnancy: a report of 21 cases and literature review[J]. Spine, 2015, 40(3): 146-153.
32. Zheng K, Xu M, Wang B, et al. Giant cell tumor of the mobile spine occurring in pregnancy: a case report and literature review[J]. Orthop Surg, 2017, 9(2): 252-256.
33. Touboul E, Khelif A, Guerin RA. Primary tumors of the spine: epidemiologic and oncologic datas[J]. Neurochirurgie, 1989, 35(5): 312-316.
34. Dahlin DC. Malignant tumors of the bones[J]. Chir Organi Mov, 1988, 73(3): 185-186.
35. Munoz-Bendix C, Sloty PJ, Ahmadi SA, et al. Primary bone tumors of the spine revisited: a 10-year single-center experience of the management and outcome in a neurosurgical department[J]. J Craniovertebr Junction Spine, 2015, 6(1): 21-29.
36. Wilartatsami S, Muangsomboon S, Benjarassameraj S, et al. Prevalence of primary spinal tumors: 15-year data from Siriraj Hospital[J]. J Med Assoc Thai, 2014, 97(Suppl 9): S83-S87.

(收稿日期:2017-09-17 修回日期:2017-12-05)

(英文编审 蒋欣/贾丹彤)

(本文编辑 李伟霞)