

Three-dimensional surface imaging in pectus excavatum

Citation for published version (APA):

Daemen, J. H. T. (2023). *Three-dimensional surface imaging in pectus excavatum*. [Doctoral Thesis, Maastricht University]. Maastricht University. <https://doi.org/10.26481/dis.20230512jd>

Document status and date:

Published: 01/01/2023

DOI:

[10.26481/dis.20230512jd](https://doi.org/10.26481/dis.20230512jd)

Document Version:

Publisher's PDF, also known as Version of record

Please check the document version of this publication:

- A submitted manuscript is the version of the article upon submission and before peer-review. There can be important differences between the submitted version and the official published version of record. People interested in the research are advised to contact the author for the final version of the publication, or visit the DOI to the publisher's website.
- The final author version and the galley proof are versions of the publication after peer review.
- The final published version features the final layout of the paper including the volume, issue and page numbers.

[Link to publication](#)

General rights

Copyright and moral rights for the publications made accessible in the public portal are retained by the authors and/or other copyright owners and it is a condition of accessing publications that users recognise and abide by the legal requirements associated with these rights.

- Users may download and print one copy of any publication from the public portal for the purpose of private study or research.
- You may not further distribute the material or use it for any profit-making activity or commercial gain
- You may freely distribute the URL identifying the publication in the public portal.

If the publication is distributed under the terms of Article 25fa of the Dutch Copyright Act, indicated by the "Taverne" license above, please follow below link for the End User Agreement:

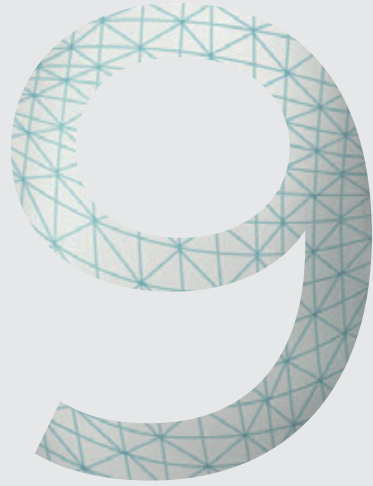
www.umlib.nl/taverne-license

Take down policy

If you believe that this document breaches copyright please contact us at:

repository@maastrichtuniversity.nl

providing details and we will investigate your claim.



Summary

Samenvatting

Summary

The **main objective of this thesis** has been to eliminate the exposure to ionizing radiation in the preoperative evaluation of pectus excavatum by introduction of three-dimensional (3D) surface imaging. It was hypothesized that 3D surface images can be used interchangeably with current diagnostic procedures as a valid and accurate diagnostic tool in the preoperative work-up of patients suffering from pectus excavatum. To test this hypothesis, individual chapters can be distinguished forming the basis of this thesis.

The general background and introduction to the different chapters are provided in **Chapter 1**.

In **Chapter 2** we started by evaluating the current role of three-dimensional imaging as a diagnostic tool to determine pectus excavatum severity compared to computed tomography (CT) and plain radiographs through a systematic review of the available literature. Based on this review we determined the different aspects to be studied to achieve the above-mentioned main objective of the present thesis.

Three-dimensional imaging was found to be an attractive, feasible and promising imaging technique to determine the severity of pectus excavatum without exposure to ionizing radiation. Although a pooled correlation of 0.89 between the computed tomography (CT) derived Haller Index and its 3D image equivalent based on external measures was found, further research was concluded to be imperative for 3D image to be used in the clinical process of decision making and help determine surgical candidacy. This included, amidst other aspects, the determination of cut-off values for 3D image based severity measures.

To be able to obtain 3D images in a reproducible manner, a dedicated protocol was developed in **Chapter 3**. Individual steps included patient positioning and instructions, data acquisition, and data processing. As a subsidiary aim, it was evaluated whether anthropometric measurements recorded using conventional two-dimensional photography can be equally obtained from 3D images. Based on 19 consecutive pectus excavatum patients who were imaged using the developed protocol, feasibility was demonstrated. In addition, 3D imaging was found to be interchangeably usable with anthropometric measurements to determine the severity of pectus excavatum (intraclass correlation coefficient: 0.97; 95%-confidence interval: 0.88 to 0.99; $P < 0.001$).

Building on the developed protocol (**Chapter 3**) we evaluated the accuracy and reproducibility of three commercially available 3D imaging systems that can be used to obtain images of the anterior chest wall in **Chapter 4**. The devices concerned one static (3dMD system [3dMD, Atlanta, GA, USA]) and two hand-held imaging systems (Artec Leo [Artec3D, Luxembourg, Luxembourg] and the Einscan Pro 2X Plus [Shining 3D, Hangzhou, China]) of which the former is currently considered as gold standard. Among 15 healthy volunteers, 3D images of the anterior chest wall were acquired twice per imaging device. All devices demonstrated statistically comparable reproducibility with a mean absolute difference between consecutive images ranging from 0.48 to 0.59mm. The accuracy was best for the Artec Leo imaging system (0.81mm.), as also employed in the different studies incorporated in the present thesis.

Having developed a dedicated imaging and processing protocol (**Chapter 3**), as well as determined the accuracy and reproducibility of the imaging system of our choice (**Chapter 4**), we proceeded to determine cut-off values for the 3D image based alternative severity measures, such that 3D image can be used in the clinical process of decision making and help determine surgical candidacy. Using the Haller index and correction index derived from conventional imaging modalities (i.e., CT and two-view plain radiographs) as reference, the 3D image derived external Haller index and external correction index were found to be accurate radiation-free alternatives to facilitate surgical decision-making among patients suspected of pectus excavatum with values of ≥ 1.83 and $\geq 15.2\%$ indicative for surgery (**Chapter 5**).

Next to severity measures, such as the external Haller index and external correction index, intrathoracic information on cardiac status also aids in the process of surgical decision making. Cardiac compression is considered as one of the indications for corrective surgery. Yet, since 3D images solely contain information regarding the surface topography, cardiac evaluation is not conceivable with 3D images as it is with CT. **Chapter 6** therefore aimed to develop a 3D image-based prediction model for cardiac compression in patients evaluated for pectus excavatum. Exploring 3D image derived pectus measurements and baseline patient characteristics (including subjective symptoms), a combination of the external pectus depth and external anteroposterior distance was identified as predictive for cardiac compression. In a second model for males alone, solely the external pectus depth was identified as predictor. Both models provided an outstanding discriminatory performance (area under the receiver-operating characteristic curve of 0.935 and

0.947, respectively) between the presence and absence of cardiac compression with negligible optimism.

Exploiting the potential of 3D images, **Chapter 7** evaluated the inter-observer and intra-observer agreement of visual examination and diagnosis of pectus excavatum among experts from different centers. Interactive three-dimensional images were evaluated for the presence of pectus excavatum, asymmetry, flaring, depth of deformity, cranial onset, overall severity, and morphological subtype through a questionnaire. Fifty-eight interactive 3D images of pectus excavatum patients were evaluated twice by 5 (cardio)thoracic surgeons, yielding considerable inter-observer and intra-observer differences. For example, 55% (n=32/58) to 95% (n=55/58) patients were judged to suffer from pectus excavatum by different experts. As this variation in judgement could significantly impact work-up and treatment strategy, objective standardization is urged.

To conclude, a general discussion on the results and findings of this thesis, as well as an elaboration on its scientific and societal impact are to be read in **Chapter 8**.

Returning to the hypothesis, this thesis demonstrated that 3D images can be used interchangeably with current diagnostic procedures as a valid and accurate diagnostic tool in the preoperative work-up of patients suffering from pectus excavatum. Still, future studies should aim to address the limitations, ensuring its solid scientific embedding.

Samenvatting

Pectus excavatum, ook wel bekend als trechterborst of schoenmakersborst, is de meest voorkomende aandoening van de borstwand. De exacte ontstaanswijze is vooralsnog onbekend. De huidige theorieën beschrijven een afwijking van het ribkraakbeen, waardoor een typische indeuking van de borstwand ontstaat met verplaatsing van het borstbeen naar achteren. Dit kan schaamte en cosmetische klachten veroorzaken, maar ook fysieke klachten door compressie van het hart. Door deze verscheidenheid aan mogelijke klachten is het belangrijk een gedegen preoperatieve evaluatie uit te voeren. Onderdeel van deze evaluatie is beeldvorming. In de huidige praktijk behelst dit vaak beeldvormingsmethoden die de patiënt blootstellen aan ioniserende röntgenstraling, zoals een röntgenfoto of computertomografie (CT)-scan. Deze straling heeft op termijn negatieve gezondheidseffecten, met name bij relatief jonge patiënten, die het grootste deel uitmaken van de populatie met pectus excavatum.

Doel van dit proefschrift is het elimineren van de blootstelling aan röntgenstraling bij de preoperatieve evaluatie van pectus excavatum door toepassing van driedimensionale (3D) oppervlaktebeeldvorming. De hypothese is dat deze 3D-beelden kunnen worden gebruikt als een betrouwbaar en nauwkeurig diagnostisch instrument in de preoperatieve evaluatie van patiënten met een pectus excavatum. Om deze hypothese te testen worden afzonderlijke hoofdstukken onderscheiden.

Dit proefschrift begint met een algemene inleiding over pectus excavatum in **Hoofdstuk 1**.

Hoofdstuk 2 is een inventarisatie van beschikbare kennis over 3D-beeldvorming om de ernst van pectus excavatum te bepalen in vergelijking met röntgenfoto's en CT. Hiervoor werd een systematische review verricht. Er werd aangetoond dat de mate van ernst van de pectus excavatum op basis van 3D-beeldvorming (externe Haller index) positief gecorreleerd was aan de mate van ernst op basis van de CT (Haller index). Verder onderzoek werd noodzakelijk geacht voor het gebruik van 3D-beelden in het klinische besluitvormingsproces en voor het selecteren van patiënten geschikt voor chirurgische behandeling. Dit omvatte onder meer de bepaling van afkapwaarden voor op 3D-beelden gebaseerde maten voor de ernst van pectus excavatum om patiënten te selecteren voor chirurgie.

Om op reproduceerbare wijze 3D-beelden te kunnen verkrijgen, werd in **Hoofdstuk 3** een beeldvormingsprotocol ontwikkeld specifiek voor borstwandaandoeningen. De afzonderlijke stappen omvatten de positionering van en instructies aan de patiënt, het verkrijgen van de beelden, en het verwerken en bewerken hiervan. Hierbij werd tevens duidelijk dat de manuele externe dieptemeting van pectus excavatum middels schuifmaat vergelijkbaar is met de dieptemeting op basis van de 3D-beelden.

Voortbouwend op het ontwikkelde beeldvormingsprotocol in **Hoofdstuk 3**, werd in **Hoofdstuk 4** de nauwkeurigheid en reproduceerbaarheid van een drietal commercieel verkrijgbare 3D-beeldvormingssystemen geëvalueerd. Deze systemen omvatten één statisch (3dMD systeem [3dMD, Atlanta, GA, USA]) en twee handbediende beeldvormingssystemen (Artec Leo [Artec3D, Luxemburg, Luxemburg] en de Einscan Pro 2X Plus [Shining 3D, Hangzhou, China]) waarvan eerstgenoemde de geaccepteerde gouden standaard is. Bij 15 gezonde vrijwilligers werden 3D-beelden van de voorste borstwand vervaardigd, twee opnames per beeldvormingssysteem. Alle systemen vertoonden een statistisch vergelijkbare reproduceerbaarheid. De Artec Leo vertoonde de beste (sub-millimeter) nauwkeurigheid en werd om deze reden gekozen. Dit beeldvormingssysteem is daarom ook gebruikt in de opvolgende studies.

In **Hoofdstuk 5** is er na probleemstelling in **Hoofdstuk 2** gezocht naar afkapwaarden van objectieve indices op basis van 3D-beelden die kunnen worden gebruikt om een operatie-indicatie te stellen. Gebruikmakend van de Haller-index en de correctie-index op basis van conventionele beeldvormingsmethoden (d.w.z. CT en röntgenfoto's in twee richtingen), bleken de externe Haller-index en externe correctie-index op basis van de 3D-beelden een nauwkeurig stralingsvrij alternatief te zijn, waarbij waarden van respectievelijk $\geq 1,83$ en $\geq 15,2\%$ indicatief zijn voor chirurgische behandeling van pectus excavatum.

Naast objectieve metingen van de ernst van pectus excavatum, zoals de externe Haller-index en de externe correctie-index (**Hoofdstuk 5**), is ook compressie van het hart door pectus excavatum een van de indicaties voor chirurgische behandeling van pectus excavatum. Aangezien 3D-beelden echter alleen informatie over de oppervlaktetopografie (lees: buitenzijde van de borstwand) bevatten, is een directe evaluatie van eventuele compressie van het hart niet mogelijk, zoals dit met bijvoorbeeld CT wel is. Het doel van **Hoofdstuk 6** was

daarom een voorspellingsmodel te ontwikkelen voor compressie van het hart op basis van 3D-beelden. Een combinatie van de externe pectusdiepte en de voor-achterwaartse afstand (van voorzijde borstbeen tot achterzijde ruggengraat) werden hierbij geïdentificeerd als voorspellend voor compressie van het hart. In een tweede model dat louter gebaseerd was op mannelijke patiënten, werd alleen de externe pectusdiepte als voorspellend geïdentificeerd. Beide modellen gaven een uitstekend onderscheidend vermogen tussen de aan- en afwezigheid van compressie van het hart.

In **Hoofdstuk 7** werd de overeenstemming in de visuele beoordeling van 3D-beelden door verschillende experts geëvalueerd, en ook de overeenstemming bij herhaalde beoordeling door eenzelfde expert. Door middel van een vragenlijst werden interactieve 3D-beelden digitaal beoordeeld op de aanwezigheid van pectus excavatum, asymmetrie, flaring, diepte, beginpunt, algemene ernst en morfologisch subtype van pectus excavatum. Achtenvijftig interactieve unieke 3D-beelden werden tweemaal beoordeeld door 5 (cardio)thoracale chirurgen. Er bleek een aanzienlijk verschil te bestaan in de beoordeling tussen experts en herhaalde beoordeling van eenzelfde expert. Zo werden 55% tot 95% van de patiënten door verschillende experts beoordeeld als lijdend aan pectus excavatum. Aangezien deze variatie in beoordeling van grote invloed kan zijn op de uiteindelijke behandelingsstrategie, werd aangedrongen op vervolgstudies naar standaardisatie, onder andere middels het opstellen van definities.

Een algemene discussie over de resultaten en bevindingen van dit proefschrift, evenals een uitwerking van de wetenschappelijke en maatschappelijke impact ervan, is te lezen in **Hoofdstuk 8**.

Dit proefschrift toont aan dat 3D-beelden kunnen worden gebruikt als een betrouwbaar en nauwkeurig diagnostisch hulpmiddel in de preoperatieve evaluatie van patiënten met pectus excavatum.