

FACED-UP: Fast Analysis of Cervical Dystonia – Unobtrusive and Precise

dr. Jan C. van Gemert

TU Delft, computer vision lab

dr. P.J.M. (Linda) van Schaik-Bank

Leids Universitair Medisch Centrum, afdeling Neurologie

Doel van het onderzoek

Cervicale Dystonie (CD) kenmerkt zich door aanhoudende spiercontracties in de nek die leiden tot abnormale, repetitieve hoofdbewegingen en -houdingen. Voor het stellen van de diagnose en het beoordelen van behandelresultaten worden klinische schalen en vragenlijsten gebruikt (bijv. TWSTRS). Deze beoordelingen zijn echter subjectief en sterk afhankelijk van de expertise van de arts. Soms wordt CD verkeerd gediagnostiseerd als essentiële tremor, waardoor patiënten onjuist worden geïnjecteerd met botulinetoxine of onnodig worden blootgesteld aan niet-effectieve medicatie.

Het doel van het *FACED-UP* project is om een objectieve, patiëntvriendelijke meetopstelling te ontwikkelen waarmee relevante karakteristieken van bewegingsstoornissen aan het hoofd zoals CD worden bepaald uit video- en dieptebeelden (verkregen met Microsoft Kinect™), zonder dat de patiënt uitgerust hoeft te worden met sensoren of markers. Het TIM-bewegingslaboratorium in het LUMC biedt de benodigde medische en technische infrastructuur en expertise (van LUMC, TU Delft) voor een dergelijk interdisciplinair onderzoek.

Specifieke doelen:

1. Ontwikkelen van computer-vision technieken voor het nauwkeurig evalueren van de standsafwijking en bewegingsstoornissen (beven/schokken) van het hoofd uit kleuren- en dieptebeelden van Kinect™ camera's.
2. Onderzoeken in hoeverre de met computer-vision verkregen uitkomstmaten samenhangen met klinische beoordelingen (TWSTRS scores) en uitkomstmaten verkregen met een versnellingsmeter.
3. Onderzoeken of CD-patiënten m.b.v. machine learning en pattern recognition technieken te onderscheiden zijn van patiënten met een essentiële tremor van het hoofd.

Motivatie voor het onderzoek

Dystonie is een chronische neurologische aandoening die zich kenmerkt door intermitterende of aanhoudende spiercontracties die leiden tot abnormale, vaak repetitieve bewegingen en/of houdingen. Met een prevalentie van 5,7 patiënten op 100.000 mensen is cervicale dystonie (CD, "draainek") in West-Europa de meest voorkomende dystonie.⁷ CD gaat meestal gepaard met pijn en forse beperkingen in het dagelijks functioneren (zowel lichamelijk als sociaal).²¹ Het aantal patiënten in Nederland wordt geschat op 8.000.¹⁸

Omdat de oorzaak van CD nog niet bekend is, is de behandeling gericht op het bestrijden van symptomen, zoals het verminderen van onvrijwillige bewegingen, corrigeren van abnormale standen van het hoofd en verminderen van pijn. De huidige behandeling bestaat uit het periodiek (om de drie maanden) injecteren van de dystone nekspieren met botuline toxine

(BTX) om de spierspanning te verminderen. Naast BTX-behandeling krijgen de meeste CD-patiënten fysiotherapie, al dan niet in combinatie met spierverslappende medicatie.^{1,12}

De belangrijkste voorwaarde voor het instellen van een goede behandeling is dat de gestelde diagnose correct is. Presentatievormen van CD waarbij het hoofd beeft of schokt en de standsafwijking gering is, worden in de praktijk nogal eens verkeerd gediagnostiseerd als essentiële tremor van het hoofd, een aandoening die gekenmerkt wordt door beven (nenschudden of ja-knikken) van het hoofd. Hoewel een essentiële tremor van het hoofd ook met BTX-injecties behandeld kan worden, dienen andere spieren te worden geïnjecteerd dan bij CD. Daarnaast wordt essentiële tremor vaak behandeld met orale medicatie die niet effectief is bij CD-patiënten. Als gevolg van een verkeerd gestelde diagnose worden CD-patiënten dus onjuist geïnjecteerd met BTX of onnodig blootgesteld aan niet-effectieve medicatie. Omdat de BTX-behandeling van CD in principe levenslang plaatsvindt, is het belangrijk dat steeds de juiste spieren behandeld worden en het effect van de behandeling op een nauwkeurige en objectieve wijze wordt geëvalueerd.

In de praktijk wordt CD voornamelijk geëvalueerd met klinische schalen en vragenlijsten, zoals de Tsui score¹⁹ en de TWSTRS⁵ (zie Appendix 1). Deze beoordelingen zijn subjectief en sterk afhankelijk van de expertise van de arts. Er is dan ook grote behoefte aan objectieve en gebruiksvriendelijke technieken die de belangrijkste aspecten van CD accuraat in kaart kunnen brengen.¹⁴

Recente ontwikkelingen op het gebied van bewegingsregistratie en computer-vision bieden een uitgelezen kans om objectieve metingen te verrichten en kunnen daarmee bijdragen aan een oplossing voor de tekortkomingen van de huidige klinische beoordelingen. Recentelijk is een innovatief bewegingslaboratorium opgezet in het LUMC. In dit Technology In Motion (TIM) project werken onderzoekers van LUMC, TU Delft en Vrije Universiteit samen aan de ontwikkeling en toepassing van gebruiksvriendelijke technieken voor het evalueren van bewegingsstoornissen. Binnen het TIM project wordt nieuwe Microsoft Kinect™ technologie ingezet voor 'markerloze' bewegingsregistraties (d.w.z. zonder op het lichaam aangebrachte sensoren en snoeren; zie Figuur 1) om zowel hand- en armfunctie³ als loopvaardigheid en balans¹⁰ in kaart te brengen bij verschillende neurologische aandoeningen (beroerte, Ziekte van Parkinson). De technische infrastructuur en de binnen het TIM project opgedane ervaring bieden een uitstekende gelegenheid voor het ontwikkelen van een markerloze techniek voor het stellen van de juiste diagnose van bewegingsstoornissen aan het hoofd en voor objectieve evaluatie van CD.

Een dergelijke kwantificatie van CD betekent dat metingen snel, goedkoop en op gestandaardiseerde wijze kunnen worden verricht door een medisch assistent, waarna objectieve meetresultaten aan de behandelend arts kunnen worden doorgegeven. Relevante aspecten van CD - die met het blote oog moeilijk te onderscheiden zijn - kunnen hiermee onder de aandacht van de medisch specialist worden gebracht. Op deze wijze kan het onderzoek kan bijdragen aan een meer betrouwbare diagnostiek van CD, waardoor een betere selectie van behandeling en een nauwkeuriger beoordeling van het behandelresultaat mogelijk is.



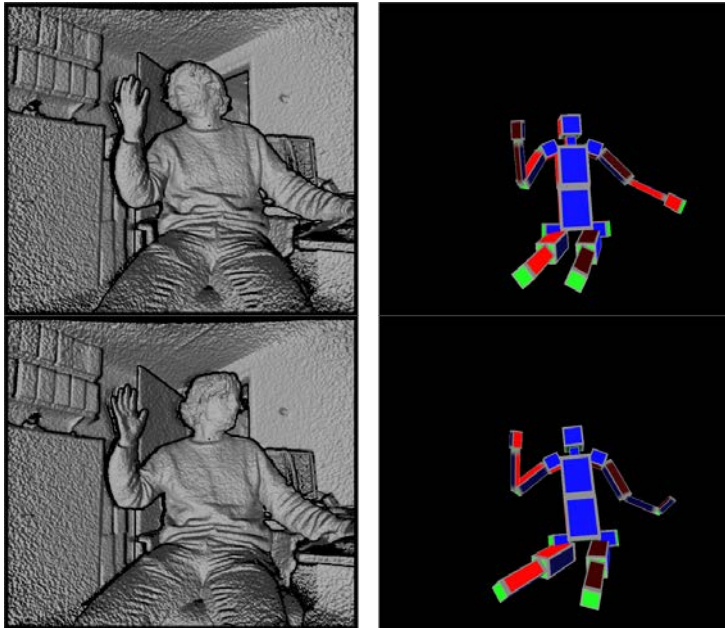
Figuur 1 Markerloze bewegingsregistratie (d.w.z. zonder op het lichaam aangebrachte sensoren en snoeren) met Microsoft Kinect™ technologie. De Kinect™ levert automatisch de posities en oriëntaties van een groot aantal geschatte 'lichaamspunten', waaronder het hoofd, de schouders, ellebogen, handen, heupen, knieën, enkels en voeten.

Werkplan voor het onderzoek

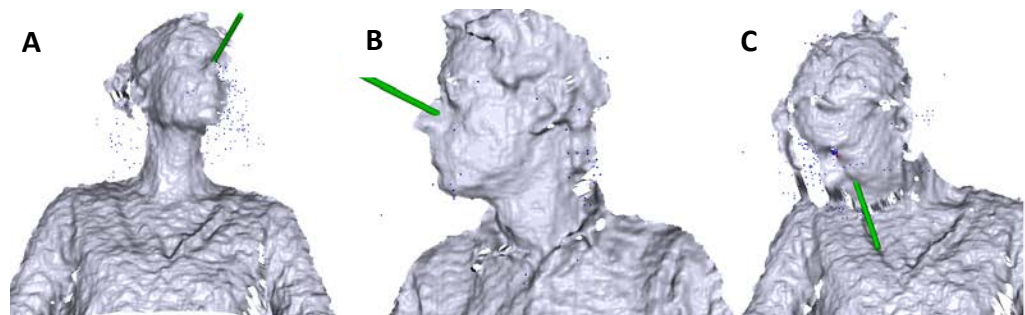
Tussen september 2016 en januari 2017 is bij 20 CD-patiënten en 20 gezonde proefpersonen een gestandaardiseerd videoprotocol afgenomen volgens de TWSTRS richtlijnen⁴. Hetzelfde protocol is afgenomen bij 5 patiënten met essentiële tremor van het hoofd, een aandoening die minder vaak voorkomt dan CD. Hoge-resolutie videobeelden en dieptebeelden werden verkregen door middel van Kinect™. Ter controle en validatie van de berekende hoofdbewegingen en -oriëntaties werd een kleine versnellingsmeter op het hoofd van de proefpersoon bevestigd. Daarnaast is de TWSTRS ingevuld door een neuroloog.

De Kinect™ levert automatisch de posities en oriëntaties van een groot aantal geschatte 'lichaamspunten' (Figuur 1; voor reviews zie ^{2,6,11}). Uit vooronderzoek blijkt echter dat deze automatisch geleverde oriëntatie van het hoofd geen goede weergave is van de daadwerkelijke hoofdoriëntatie (Figuur 2). Om subtiele en extreme hoofdoriëntaties toch accuraat te kunnen meten, moeten dus andere computer-vision technieken worden toegepast.

Er zijn verscheidene methoden voor het schatten van hoofdoriëntaties uit video- en/of dieptebeelden beschreven.^{16,22} Veel onderzoek is gericht op het detecteren van gelaatsuitdrukkingen en kijkrichting in een frontaal aanzicht,^{13,15,20} waarbij extreme hoofdoriëntaties (die bij CD juist vaak voorkomen) niet aan bod komen. Ander onderzoek richt zich op het grofweg classificeren van extreme hoofdoriëntaties uit lage-resolutie video,⁹ waarbij subtiele bewegingen en houdingsafwijkingen niet onderscheiden worden. Er zijn ook technieken die bewegingen van het gezicht volgen door een profiel van gezichtskenmerken op te bouwen (Figuur 3).^{8,17}



Figuur 2 Voorbeeld van metingen uit de Microsoft Kinect™ sensor. Elke rij toont (links) het ruwe dieptebeeld en (rechts) de bijbehorende geschatte locatie en oriëntatie voor diverse lichaamspunten. Gekleurde zijden van de dozen dienen om de verschillende oriëntatie-assen te onderscheiden. De oriëntatieschattingen zijn relatief goed voor de rechter hand, maar zijn niet representatief voor de werkelijke hoofdoriëntatie.



Figuur 3 Voorbeelden van geschatte hoofdoriëntaties uit dieptebeelden: goede schattingen (A en B) en een foutieve schatting (C).⁸

De eerste analyses van de verzamelde data laten zien dat een methode gebaseerd op enkel dieptebeelden of enkel videobeelden helaas onvoldoende nauwkeurige resultaten oplevert. Technieken waarbij gebruik gemaakt wordt van zowel de diepte- als videobeelden lijken dus noodzakelijk (en veelbelovend). Welke (combinaties van) methoden bruikbaar zijn voor de evaluatie van CD is één van de onderzoeksvragen binnen dit project.

Appendix 1: Toronto Western Spasmodic Torticollis Rating Scale (TWSTRS)⁵

A. Maximal excursion		
1 Rotation (turn: right or left)	1	None
	2	Slight (< ¼ range – 1-22°)
	3	Mild (> ¼ - ½ range – 23-45°)
	4	Moderate (½ – ¾ range – 46-67°)
	5	Severe (> ¾ range – 68-90°)
2 Laterocollis (tilt: right or left) (exclude shoulder elevation)	1	None
	2	Mild (1-15°)
	3	Moderate (16-35°)
	4	Severe (>35°)
3 Anterocollis/retrocollis (<i>a or b</i>)		
a) Anterocollis	0	None
	1	Mild downward deviation of the chin
	2	Moderate downward deviation
	3	Severe (the chin approximates the chest)
b) Retrocollis	0	None
	1	Mild upward deviation of the vertex with upward deviation of the chin
	2	Moderate backward deviation
	3	Severe (approximates full range)
4 Lateral shift (right or left)	0	Absent
	1	Present
5 Sagittal shift (forward or backward)	0	Absent
	1	Present
B. Duration factor (weighted x 2)		
	0	None
	1	Occasional deviation (<25% of the time) most often submaximal
	2	Occasional deviation (<25% of the time) often maximal, or intermittent (25-50% of the time) most often submaximal
	3	Intermittent deviation (25-50% of the time) often maximal, or frequent (50-75% of the time) most often submaximal
	4	Frequent deviation (50-75% of the time) often maximal, or constant (>75% of the time) most often submaximal
	5	Constant deviation (>75% of the time) often maximal.
C. Effect of sensory tricks		
	0	Complete relief by one or more 'trick'
	1	Partial or only limited relief by "tricks"
	2	Little or no benefit from "tricks"
D. Shoulder elevation / anterior displacement		
	0	Absent
	1	Mild (< 1/3 of possible range) intermittent or constant, or moderate and intermittent
	2	Moderate (1/3 – 2/3 of possible range) and constant (>75% of the time), or severe (>2/3 of possible range) and intermittent
	3	Severe and constant
E. Range of motion (without the aid of sensory tricks): If limitation occurs in more than one plane of motion, use the individual score that is highest.		
	0	Able to move to the extreme opposite position
	1	Able to move the head well past the midline but not to the extreme opposite position

- 2 Able to move the head barely past the midline
- 3 Able to move the head toward but not past the midline
- 4 Barely able to move the head beyond an abnormal posture

F. Time (up to 60 s) that the patient is able to maintain the head within 10deg of the neutral position without the use of sensory "tricks" (the mean of two attempts)

- 0 >60s
- 1 46-60 s
- 2 31-45 s
- 3 16-30 s
- 4 <15 s

Total severity score = sum A to F
(maximum score = 35)

Referenties

- [1] Albanese A, Barnes MP, Bhatia KP, Fernandez-Alvarez E, Filippini G, Gasser T, Krauss JK, Newton A, Rektor I, Savoirdo M, Valls-Sole J. A systematic review on the diagnosis and treatment of primary (idiopathic) dystonia and dystonia plus syndromes: report of an EFNS/MDS-ES Task Force. *Eur J Neurol* 2006;13:433-444.
- [2] Ballester J, Pheatt C. Using the Xbox Kinect sensor for positional data acquisition. *American journal of Physics* 2013;81:71-77.
- [3] Bank PJM, Marinus J, de Groot JH, van Hilten JJ, Meskers CGM. Integrated assessment of motor (dys)function in stroke and Parkinson's disease patients (NEURAS-IMA). Congress on Neurorehabilitation and Neural Repair 2015.
- [4] Comella CL, Stebbins GT, Goetz CG, Chmura TA, Bressman SB, Lang AE. Teaching tape for the motor section of the Toronto Western Spasmodic Torticollis Scale. *Mov Disord* 1997;12:570-575.
- [5] Consky ES, Lang AE. Clinical assessments of patients with cervical dystonia. *Neurological Disease and Therapy* 1994;25:211.
- [6] Dutta T. Evaluation of the Kinect sensor for 3-D kinematic measurement in the workplace. *Appl Ergon* 2012;43:645-649.
- [7] Epidemiological Study of Dystonia in Europe (ESDE) Collaborative Group. A prevalence study of primary dystonia in eight European countries. *J Neurol* 2000;247:787-792.
- [8] Fanelli G, Weise T, Gall J, Van Gool L. Real time head pose estimation from consumer depth cameras. *Pattern Recognition Springer*, 2011. pp. 101-110.
- [9] Flohr F, Dumitru-Guzu M, Kooij JF, Gavrila DM. A probabilistic framework for joint pedestrian head and body orientation estimation. 2014.
- [10] Geerse DJ, Coolen BH, Roerdink M. Kinematic Validation of a Multi-Kinect v2 Instrumented 10-Meter Walkway for Quantitative Gait Assessments. *PLoS One* 2015;10:e0139913.
- [11] Han J, Shao L, Xu D, Shotton J. Enhanced computer vision with Microsoft Kinect sensor: a review. *IEEE Trans Cybern* 2013;43:1318-1334.
- [12] Jankovic J. Treatment of dystonia. *Lancet Neurol* 2006;5:864-872.
- [13] Jeni LA, Cohn JF, Kanade T. Dense 3D Face Alignment from 2D Videos in Real-Time. FG, 2015.
- [14] Jost WH, Hefter H, Stenner A, Reichel G. Rating scales for cervical dystonia: a critical evaluation of tools for outcome assessment of botulinum toxin therapy. *J Neural Transm (Vienna)* 2013;120:487-496.
- [15] Mora KAF, Odobez JM. Gaze estimation from multimodal kinect data. *Computer Vision and Pattern Recognition Workshops (CVPRW)*, 2012 IEEE Computer Society Conference on IEEE, 2012. pp. 25-30.

- [16] Murphy-Chutorian E, Trivedi MM. Head pose estimation in computer vision: A survey. *Pattern Analysis and Machine Intelligence, IEEE Transactions on* 2009;31:607-626.
- [17] Padeleris P, Zabulis X, Argyros A. Head pose estimation on depth data based on Particle Swarm Optimization. *Computer Vision and Pattern Recognition Workshops (CVPRW), 2012 IEEE Computer Society Conference on IEEE, 2012.* pp. 42-49.
- [18] Postma M, Zoons E, Speelman JD, de Koning - Tijssen MAJ. (Botuline) behandelrichtlijn voor cervicale dystonie 2012. pp. 1-90.
- [19] Tsui JK, Eisen A, Stoessl AJ, Calne S, Calne DB. Double-blind study of botulinum toxin in spasmodic torticollis. *Lancet* 1986;2:245-247.
- [20] Valenti R, Sebe N, Gevers T. Combining head pose and eye location information for gaze estimation. *Image Processing, IEEE Transactions on* 2012;21:802-815.
- [21] Werle RW, Takeda SY, Zonta MB, Guimaraes AT, Teive HA. The physical, social and emotional aspects are the most affected in the quality of life of the patients with cervical dystonia. *Arq Neuropsiquiatr* 2014;72:405-410.
- [22] Ye M, Zhang Q, Wang L, Zhu J, Yang R, Gall J. A survey on human motion analysis from depth data. *Time-of-Flight and Depth Imaging. Sensors, Algorithms, and Applications Springer, 2013.* pp. 149-187.